

Síndrome de la costilla deslizante. Serie de 4 casos clínicos

F.B. Nava¹, M. Barrial¹, M. Bret², A.J. Muñoz¹, J. Serradilla¹, J.L. Encinas¹, L. Martínez¹, M. López-Santamaría¹, C.A. De la Torre¹

¹Servicio de Cirugía Pediátrica; ²Servicio de Radiología Infantil. Hospital Universitario La Paz. Madrid.

RESUMEN

Introducción. El síndrome de costilla deslizante (SCD) es una entidad poco frecuente en niños. Se cree que su causa es una debilidad en los ligamentos costales que permite una hiper movilidad de las costillas. Genera un dolor intermitente en la región baja del tórax o alta del abdomen que puede afectar a las actividades de la vida diaria o generar un dolor crónico.

Material y métodos. Revisión retrospectiva de SCD entre octubre de 2012 y diciembre de 2017. Se recogió información acerca de los datos demográficos, síntomas, estudios de imagen, hallazgos intraoperatorios, material fotográfico y seguimiento a largo plazo.

Resultados. Durante este periodo, 4 pacientes fueron diagnosticados de SCD. La mediana de edad al diagnóstico fue de 13 años (12-15 años) con una duración previa de los síntomas de 13 meses (12-36 meses). En 2 pacientes se asoció una dismorfia costal (DC). El diagnóstico fue clínico con confirmación ecográfica. Se realizó resección de los cartílagos afectados en 3 pacientes con un seguimiento posterior de 6 meses (3-30 meses). Actualmente se encuentran sin dolor y con un resultado estético satisfactorio. Un paciente rechazó la intervención.

Conclusiones. El SCD aparece en pacientes preadolescentes que en algunos casos asocian DC. Una exploración física y ecografía enfocada son las claves para un diagnóstico certero. La resección de cartílagos es efectiva a largo plazo.

PALABRAS CLAVE: Costilla deslizante; Anomalías costales; Dolor costal; Ultrasonido.

SLIPPING RIB SYNDROME IN PAEDIATRICS: REPORT OF 4 CASES

ABSTRACT

Aim of the study. The slipping rib syndrome (SRS) is an unknown pathology for the pediatric surgeon due to its low incidence in children. The weakness of the costal ligaments allowing an area of rib hypermobility has been postulated recently as the main etiology. It produces an

Correspondencia: Dr. Francisco de Borja Nava Hurtado de Saracho. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario La Paz. Paseo de la Castellana, 261. 28046 Madrid.

E-mail: fnavahursa@gmail.com

Trabajo presentado en el LVII Congreso Nacional de Cirugía Pediátrica celebrado en Granada en Mayo de 2018

Recibido: Mayo 2018

Aceptado: Septiembre 2018

intermittent pain in the lower thorax or upper abdomen that can affect to the daily activities and can be the origin of unspecific chronic pain.

Methods. A retrospective review of patients diagnosed with SRS between October 2012 and March 2017 was performed. Data of demographics, symptoms, imaging studies, surgical findings and long-term follow-up were collected.

Results. During this period, 4 patients were diagnosed with SRS. Median age at diagnosis was 13 years (12-15 years) with a mean duration of symptoms of 13 months (12-36 months). In 2 patients the SRS was associated with Costal Dystrophy (CD). The initial diagnosis was clinical with posterior ultrasound confirmation. Resection of the affected cartilages was performed in 3 patients and after a follow-up of 6 months (3-30 months), they all are painless and refer a good cosmetic result. One patient refused the intervention.

Conclusions. The SRS is an infrequent cause of thoracic pain with an etiology not well understood. The awareness of this disease and its typical presentation can avoid unnecessary studies. The resection of the affected cartilages is a safe and effective treatment.

KEY WORDS: Slipping rib; Costal anomalies; Costal pain; Ultrasound.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de la costilla deslizante (SCD) es una entidad infrecuente en niños. Desde su primera descripción por Cyriax en 1919⁽¹⁾, el número de publicaciones no supera el medio centenar, siendo en su mayoría sobre pacientes adultos. Característicamente se trata de un dolor en la región costal que puede irradiarse hacia el abdomen y que puede iniciarse tras determinados movimientos. El diagnóstico diferencial es muy amplio⁽²⁾ y se tiende a investigar causas de origen visceral lo que deriva en la visita de múltiples especialistas y retraso en el diagnóstico, dejando de lado etiologías de la pared torácica como la costocondritis, el síndrome de Tietze o el SCD⁽³⁾. A pesar de ser un diagnóstico clínico, el empleo de la ecografía se limita a pocos casos en la literatura de la misma forma que la relación del SCD con la dismorfia costal. Es por ello por lo que revisamos nuestra experiencia en el diagnóstico y tratamiento del SCD en el paciente pediátrico.

MÉTODOS

Presentamos una revisión retrospectiva recopilada entre octubre de 2012 y diciembre de 2017 en una única institución. Incluimos a pacientes por debajo de 16 años con un diagnóstico de SCD. Se consideró diagnóstico de SCD: 1) Dolor a la palpación o costilla subluxada o chasquido, 2) Ecografía diagnóstica, 3) Resolución del dolor tras intervención quirúrgica. Se recopiló información acerca de los datos demográficos, síntomas, estudios de imagen, hallazgos intraoperatorios y seguimiento a largo plazo en consulta. Los estudios de imagen fueron interpretados por una radióloga experta en patología torácica pediátrica. Debido al escaso número de pacientes recopilados, los datos se expresarán en medianas.

RESULTADOS

Cuatro pacientes fueron diagnosticados de SCD, de los cuales 2 eran mujeres y 2 eran hombres. La mediana de edad fue de 13 años al diagnóstico (12-15 años) y la duración de los síntomas fue de 18,5 meses (12-36 meses). Dos pacientes describían el comienzo de los síntomas tras un evento específico: golpe contra la pared torácica mientras practicaba fútbol y apendicectomía laparoscópica. El ejercicio físico fue un desencadenante del dolor común en los 4 pacientes. Todos los pacientes presentaron un dolor punzante, localizándose en región torácica, aunque una paciente lo refería en región abdominal. Esta última paciente presentó el tiempo de evolución más largo ya que había sido vista antes por otros especialistas diferentes. La palpación de los cartílagos costales fue positiva en todos ellos y de forma consciente se evitó la realización de la maniobra del gancho. En la exploración dos pacientes presentaban un *pectus excavatum* leve asociado a una dismorfia costal consistente en una protrusión del reborde costal bilateral con acabalgamiento y aumento de la angulación entre la 7ª y la 9ª costilla. El lado derecho estaba afectado en 3 pacientes. Un paciente presentó dolor de forma bilateral. La costilla más sintomática fue la 10ª (3 pacientes) seguida de la 9ª. El diagnóstico se basó fundamentalmente en la clínica con posterior confirmación ecográfica. En todos los pacientes se realizó una ecografía donde se visualizó el deslizamiento de la costilla inferior por la cara interna de la costilla superior. Dos pacientes requirieron TAC para evaluar su *pectus* y la dismorfia costal compleja que presentaban. Tras un tiempo de seguimiento variable en consulta y comprobando un mal control del dolor con analgesia convencional se propuso la extirpación quirúrgica en los 4 pacientes. Tres de ellos la aceptaron. La actitud que se siguió en los 3 pacientes fue la resección de los cartílagos costales participantes del deslizamiento y del bloque cartilaginosa malformativo en los dos pacientes con dismorfia costal. La mediana de cartílagos resecados fue de 1 (1-3 cartílagos). Todos los pacientes sometidos a intervención quirúrgica permanecieron ingresados 5 días (2-6 días). Una paciente rechazó la intervención quirúrgica y se encuentra en tratamiento sintomático con antiinflamatorios no esteroideos

con un regular control del dolor. La totalidad de los pacientes han tenido un seguimiento completo entre 3 y 30 meses con resolución del dolor en aquellos que han sido intervenidos.

DISCUSIÓN

Poco conocido y frecuentemente mal diagnosticado, el SCD es una entidad reciente a tener en cuenta en el diagnóstico diferencial de dolor torácico y abdominal. Descrito por primera vez por Cyriax en 1919⁽¹⁾ y más adelante por Davies-Colley en 1924⁽⁴⁾, no fue hasta 1985 cuando Porter y cols.⁽⁵⁾ publicaron la primera serie de casos pediátricos.

El SCD esta causado por una debilidad de los ligamentos costoesternales (costilla-esternón), costocondrales (costilla-cartílago) y/o costovertebrales (costilla-vértebra) permitiendo una hipermovilidad de la parrilla costal⁽⁶⁾. Las costillas con una mayor predisposición son la 8ª, 9ª y 10ª, ya que se encuentran unidas a su porción anterior con el esternón por medio de cartílago. Recientemente se ha publicado una subclase de SCD en las que participan las costillas verdaderas⁽⁷⁾.

Esta debilidad cartilaginosa permite un mayor arco de movimiento de la costilla, de tal forma que espontáneamente o tras ciertos movimientos, como los respiratorios, de las extremidades superiores o maniobras de Valsalva, la costilla inferior se desplaza cranealmente pinzando las estructuras intercostales superiores como la musculatura, la cápsula articular o los nervios. Esto produce de forma inmediata un dolor que puede durar minutos u horas o evolucionar a un dolor sordo y crónico. La inervación de los nervios intercostales y de las raíces simpáticas viscerales convergen en el mismo nivel espinal que las costillas afectas en el SCD. Esta es la explicación de su semejanza con dolores viscerales del tipo: apendicitis, cólicos biliares o renales y úlcera péptica⁽⁸⁾.

En nuestra revisión, la mediana de edad ha sido de 12,5 años con ratio de hombre: mujer de 1:1, algo que difiere significativamente con la literatura, ya que es mas frecuente en las mujeres. Saltzman y cols.⁽⁹⁾ presentaron a 11 pacientes de los cuales 8 eran mujeres con una media de edades de 13,9 años. Datos similares presentaron Gould y cols.⁽¹⁰⁾ en la serie de casos más grande de pacientes pediátricos con un total de 30 pacientes siendo en su mayoría mujeres con una media de edad de 14 años. A pesar de que otros estudios presentaron los mismos datos epidemiológicos, esta discrepancia seguramente se deba al escaso número de pacientes de nuestra muestra. Las mujeres presentan una mayor laxitud ligamentosa lo que favorece la hipermovilidad costal, además de verse más afectadas en los años fértiles⁽⁸⁾. La conexión entre la hiperlaxitud y el papel de las hormonas es una relación que sigue sin estar esclarecida⁽¹¹⁾.

El lado más afectado fue el derecho y la costilla más frecuente fue la décima, hallazgos que concuerdan con otros estudios^(3,5,9,10).

Otro hallazgo significativo de esta serie de casos fue la asociación a una dismorfia costal (Fig. 1). Dos de nuestros pacientes padecían una dismorfia del reborde costal con epi-



Figura 1. A) y B) Dismorfia costal asociada a *pectus excavatum* en dos de nuestros pacientes.

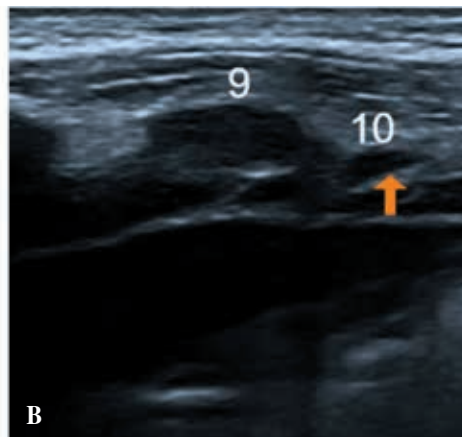
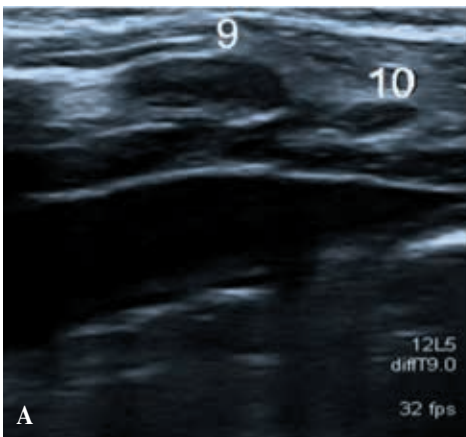


Figura 2. Imágenes realizadas con ecografía de alta resolución en la región torácica derecha baja en un paciente con SCD. Cortes transversos de costillas 9 y 10. A) En estado basal, en el que los dos cartílagos de las costillas se encuentran al mismo nivel. B) Con la maniobra de Valsalva, el 10º cartílago costal se desliza por debajo de la costilla superior, produciendo el pinzamiento de las estructuras intermedias.

sodios de dolor, tanto era así que llegaron a ocasionar síncope vasovagales en una paciente. Durante el estudio de la malformación aparte de identificar los cartílagos participantes de la misma se descubrió la falta de fusión de los cartílagos más inferiores causantes del dolor por deslizamiento. Tras confirmación mediante pruebas de imagen y su resección, tuvieron una resolución completa de los síntomas.

En la exploración física todos los pacientes presentaron dolor punzante y penetrante, unilateral con maniobras de Valsalva y a la palpación de los cartílagos costales. Dos pacientes presentaron el típico chasquido. Todos estos síntomas corresponden a la presentación típica del SCD. Otros síntomas atípicos no descritos previamente fueron, los síncope vasovagales por dolor y los vómitos en el contexto de un dolor en hipocondrio derecho que provocaron el despistaje de patología abdominal y más adelante psiquiátrica.

Cuando el diagnóstico es tardío y el dolor se cronifica, algunos pacientes comienzan con problemas psicosociales, síntomas depresivos y analgésicos potentes llevados por Unidades del Dolor⁽⁸⁾. Abbou y cols. informaron que un tercio de sus casos incluían a pacientes considerados previamente psiconeuróticos o que habían tenido una evaluación psiquiátrica⁽¹²⁾. Una paciente requirió durante su segundo ingreso de dolor abdominal recurrente sin filiar, una evaluación psi-

quiátrica, en la que no se encontró desencadenantes previos o ganancias secundarias.

Heinz y Zabala⁽¹³⁾ describieron en 1977 la maniobra del gancho como signo patognomónico de esta entidad. A pesar de ser tan característica, nosotros nos oponemos a su uso y apoyamos la tesis postulada por Gould y cols.⁽¹⁰⁾. Aunque en pacientes adultos puede ser de utilidad, es una maniobra que produce dolor independientemente de padecer o no el SCD. La confirmación diagnóstica la hemos obtenido mediante ecografía de la pared torácica. Mientras se realizaban maniobras de Valsalva se ha podido visualizar de forma dinámica el deslizamiento de la costilla y la reproducción de dolor⁽¹⁴⁾ (Fig. 2). Es un método diagnóstico fácil, reproducible, indoloro y no invasivo. Es por ello por lo que recomendamos evitar el uso de la maniobra del gancho o la inyección de anestesia local como herramienta diagnóstica.

Están descritos en la literatura diferentes tipos de tratamiento para el SCD en función del grado de dolor. Si nos encontramos con un dolor leve y no incapacitante podemos recurrir a tratamiento conservador con analgésicos no esteroideos. En una serie de casos en pacientes adultos se evidenció mejoría e incluso desaparición de los síntomas con tan solo explicar el movimiento de los cartílagos y pinzamiento de las estructuras⁽¹⁵⁾. En aquellos dolores más intensos e incapaci-



Figura 3. Pieza quirúrgica. 10º cartílago costal derecho.

tantes podemos recurrir a la inyección de anestésicos locales que además nos sirve para confirmar el diagnóstico⁽⁹⁾. Su principal problema reside en no ser definitivo y de requerir múltiples sesiones. Existe un caso publicado de inyección de toxina botulínica en los músculos intercostales con desaparición del dolor al cabo de 10 meses⁽¹⁶⁾. Aunque todas estas medidas entrañan menos riesgos, no dan solución al origen del problema. La mayoría de nuestros pacientes sufren de episodios de dolor severo que llegan a limitar sus actividades de la vida diaria o incapacitar para su labor escolar. Es por ello por lo que la mayoría de las familias prefiere un tratamiento definitivo y eficaz^(3,9,10).

En nuestra serie de casos únicamente 3 pacientes se sometieron a intervención quirúrgica. En la literatura podemos encontrar diferentes tipos de exéresis con resultados similares. Saltzman y cols.⁽⁹⁾ realizaron una resección subperióstica/subpericondrial en 12 pacientes con resolución completa de los síntomas. Más adelante Fu y cols.⁽³⁾ se limitaron a resecar únicamente el cartílago con buenos resultados. Y luego están descritas otras variantes como la del subpericondrio de Mooney y cols.⁽¹⁷⁾ o el subperiostio más cartílago de Copeland y cols.⁽¹¹⁾. Nosotros nos limitamos a resecar los cartílagos afectados con una mediana de un cartílago (Fig. 3).

El tiempo medio de estancia tras la intervención fue de 5 días. Este dato difiere significativamente del número de días aportados por el resto de las series publicadas y se debe a que a los dos pacientes con DC que presentaron intervenciones quirúrgicas más complejas, lo que conlleva un aumento en los días de estancia hospitalaria. Con un seguimiento de todos nuestros pacientes y una mediana de 17 meses actualmente se encuentran sin dolor, resultados que concuerdan con los del resto de la literatura^(3,5,9,10). Con todo ello podemos afirmar que, a pesar de la agresividad del tratamiento, el control del dolor es casi total con pocos casos de recidivas descritas⁽¹⁸⁾.

CONCLUSIONES

El SCD se debe a una hiperlaxitud del cartílago costal que origina un pinzamiento de las estructuras intercostales.

El cuadro clínico es característico al igual que la exploración. La ecografía es una herramienta diagnóstica útil que permite visualizar el deslizamiento de una costilla sobre otra. La extirpación de los cartílagos es eficaz y resolutoria con escasas complicaciones. El conocimiento de SCD como causa de dolor torácico con posible irradiación abdominal, evitará el uso de recursos innecesarios para el despistaje de otras patologías.

BIBLIOGRAFÍA

1. Cyriax EF. On various conditions that may simulate the referred pains of visceral disease, and a consideration of these from the point of view of cause and effect. *Practitioner*. 1919; 102: 314-9.
2. Kingsley RA. A Little-known cause of chest pain in a 14-year-old athlete. *J Pediatr Heal Care*. 2014; 28: 555-8.
3. Fu R, Iqbal CW, Jaroszewski DE, St. Peter SD. Costal cartilage excision for the treatment of pediatric slipping rib syndrome. *J Pediatr Surg*. 2012; 47: 1825-7.
4. Davies-Colley R. Slipping rib. *Br Med J*. 1922; 1: 432.
5. Porter GE. Slipping rib syndrome: an infrequently recognized entity in children: a report of three cases and review of the literature. *Pediatrics*. 1985; 76: 810-3.
6. Turcios NL. Slipping rib syndrome: An elusive diagnosis. *Paediatr Respir Rev*. 2017; 22: 44-6.
7. Bonasso PC, Petrus SN, Smith SD, Jackson RJ. Sternocostal slipping rib syndrome. *Pediatr Surg Int*. 2018; 34: 331-3.
8. Foley CM, Sugimoto D, Mooney DP, Meehan WP 3rd, Straccioli A. Diagnosis and treatment of slipping rib syndrome. *Clin J Sport Med*. 2017 [En prensa]. DOI: 10.1097/JSM.0000000000000506.
9. Saltzman DA, Schmitz ML, Smith SD, Wagner CW, Jackson RJ, Harp S. The slipping rib syndrome in children. *Paediatr Anaesth*. 2001; 11: 740-3.
10. Gould JL, Rentea RM, Poola AS, Aguayo P, St. Peter SD. The effectiveness of costal cartilage excision in children for slipping rib syndrome. *J Pediatr Surg*. 2016; 51: 2030-2.
11. Copeland GP, MacHin DG, Shennan JM. Surgical treatment of the 'slipping rib syndrome'. *Br J Surg*. 1984; 71: 522-3.
12. Abbou S, Herman J. Slipping rib syndrome. *Postgrad Med*. 1989; 86: 75-8.
13. Heinz GJ, Zavala DC. Slipping rib syndrome. *JAMA*. 1977; 237: 794-5.
14. Meuwly JY, Wicky S, Schnyder P, Lepori D. Slipping rib syndrome: A place for sonography in the diagnosis of a frequently overlooked cause of abdominal or low thoracic pain. *J Ultrasound Med*. 2002; 21: 339-43.
15. Wright JT. Slipping-rib syndrome. *Lancet*. 1980; 2: 632-4.
16. Piralì C, Santus G, Faletti S, De Grandis D. Botulinum toxin treatment for slipping rib syndrome: a case report. *Clin J Pain*. 2013; 29: e1-3.
17. Mooney DP, Shorter NA. Slipping rib syndrome in childhood. *J Pediatr Surg*. 1997; 3: 1081-2.
18. González Temprano N, Ayuso González L, Hernández Martín S, Molina Caballero AY, Pisón Chacón J, Martínez Bermejo MA. Síndrome de la costilla deslizante. Tratamiento agresivo pero eficaz. *An Sist Sanit Navar*. 2015; 38: 329-32.