

# Eficacia de la escisión endoscópica en el tratamiento de los quistes ductales subglóticos

J. Jiménez Gómez, J.M. Gómez Cervantes, J.L. Encinas Hernández, F. Hernández Oliveros, L. Castro Parga, O. De la Serna Blázquez, A. Alcolea Sánchez, L. Martínez Martínez, M. Lopez Santamaría, C.A. De la Torre Ramos

*Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario La Paz. Madrid.*

## RESUMEN

**Introducción.** Los quistes ductales subglóticos adquiridos (QDSA) son una causa rara de obstrucción de la vía aérea, sin consenso en la literatura en cuanto al tratamiento más eficaz. Presentamos nuestra experiencia en el tratamiento de los QDSA.

**Material y métodos.** Estudio retrospectivo de los pacientes tratados en nuestro centro por QDSA en los últimos 5 años. Se recogieron los antecedentes de intubación, la clínica presentada, el tratamiento realizado, la evolución postquirúrgica, el seguimiento en consulta y los controles endoscópicos.

**Resultados.** Se identificaron 4 pacientes, con unas medianas de edad y peso de 6,5 meses (6-8) y 5,9 kg (3,6-7), respectivamente. Todos presentaron antecedentes de intubación por intervenciones quirúrgicas, siendo prematuros 2 de ellos. La mediana entre la última intubación y el diagnóstico fue de 119,5 días (71-171). La clínica consistió en estridor bifásico con mejoría postural presentando una ocupación de la luz traqueal de más del 50% en la endoscopia diagnóstica. Se realizó escisión endoscópica (EE) al diagnóstico en 3 de los pacientes y como técnica de rescate en el cuarto por recidiva tras tratamiento con drenaje y dilatación con balón. La mediana de tiempo de intubación postquirúrgico fue de 13,5 horas (0-48) y la estancia hospitalaria de 7 días (6-9). Tras un seguimiento mediano de 17,5 meses (6-42) no se ha presentado ninguna recidiva.

**Conclusión.** Los QDSA son una causa poco frecuente de estridor post-extubación. La EE permite un tratamiento eficaz con baja tasa de recidiva.

**PALABRAS CLAVE:** Quistes ductales; Quistes subglóticos; Tratamiento; Escisión endoscópica.

## EFFICACY OF ENDOSCOPIC REMOVAL IN THE TREATMENT OF SUBGLOTTIC DUCTAL CYSTS

### ABSTRACT

**Introduction.** Subglottic cyst is a rare cause of airway obstruction, and there is a lack of evidence about the best treatment in

**Correspondencia:** Dr. Javier Jiménez Gómez. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Parc Taulí. Parc Taulí, 1. 08208 Sabadell (Barcelona).  
E-mail: j.jimenez.gomez.89@gmail.com

*Trabajo presentado en el LVIII Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica. Vigo, mayo 2019.*

Recibido: Mayo 2019

Aceptado: Noviembre 2019

the literature. This report describes our experience with endoscopic removal.

**Materials and methods.** A retrospective study of all patients undergoing endoscopic removal of subglottic cyst at our healthcare facility between 2014 and 2019 was performed. Clinic and demographic data regarding gestational age, intubation, comorbidities, surgical procedures, first symptoms, endoscopic findings, treatment, and follow-up were collected.

**Results.** Four patients were identified. Two out of four (50%) were preterm, and all patients were intubated during their neonatal period. Median age and weight at diagnosis were 6.5 months (6-8) and 5.9 kg (3.6-7). Median time between last intubation and diagnosis was 119.5 days (71-171). Biphasic stridor and progressive respiratory distress were the most common clinical symptoms. Airway obstruction of at least 50% was found during upper airway endoscopy in all patients. Endoscopic removal was performed as a first-line treatment in 3 patients, and as a second-line treatment in 1 patient. Median intubation time after treatment and hospital stay were 13.5 hours (0-48) and 7 days (6-9). All four patients are free of disease, with a median follow-up of 17.5 months (6-42).

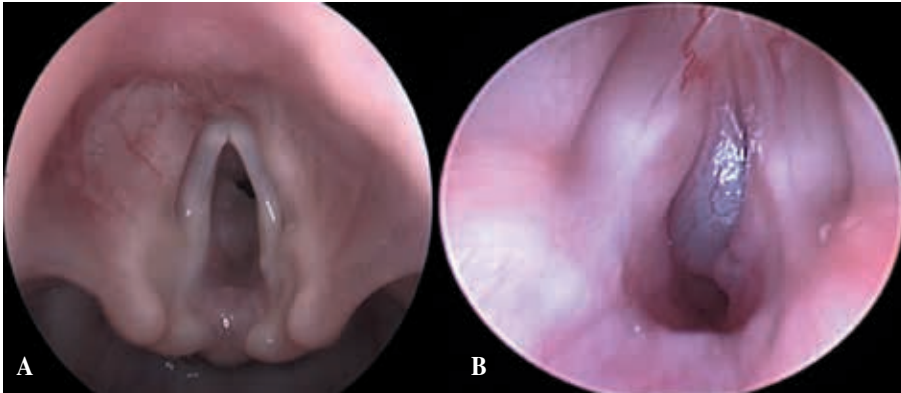
**Conclusion.** Subglottic cyst is a rare cause of post-extubation stridor. Endoscopic removal seems to be a feasible and effective treatment with a low recurrence rate.

**KEY WORDS:** Subglottic cysts; Treatment; Endoscopic removal; Children.

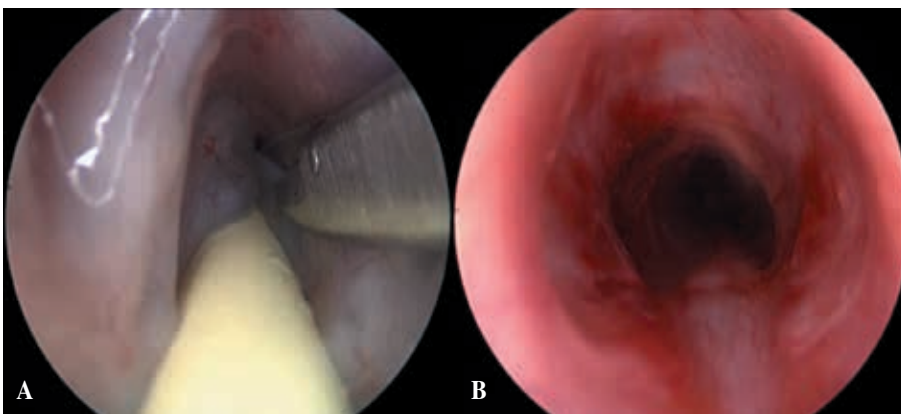
## INTRODUCCIÓN

Los quistes ductales subglóticos adquiridos (QDSA) son una entidad poco frecuente resultado de una lesión de la mucosa laríngea secundaria a intubación endotraqueal. Se presentan clásicamente meses después de la extubación como un estridor intermitente que varía con la postura y que puede llegar a causar una obstrucción completa de la vía aérea.

Desde la primera descripción en 1968 por Wigger y Tang<sup>(1)</sup>, se han publicado series de casos con muestras cada vez mayores<sup>(2-6)</sup> implicando un mayor reconocimiento de esta patología o un aumento real de su incidencia, debido al mayor número de prematuros con necesidad de ventilación mecánica en las Unidades de Cuidados Intensivos Neonatales en los últimos años.



**Figura 1.** Quistes ductales subglóticos antes del tratamiento. A) Quistes bilaterales posteriores en paciente 1. B) Quiste ductal anterolateral izquierdo en paciente 3.



**Figura 2.** Quistes ductales subglóticos. A) Escisión endoscópica mediante microtijera con soporte jet en paciente 1. B) Resultado postquirúrgico inmediato en paciente 1.

Aunque el tratamiento de los QDSA es quirúrgico, existen en la literatura diversas técnicas descritas (punción, dilatación con balón, tratamiento con láser CO<sub>2</sub>, desbridamiento, escisión)<sup>(5)</sup> sin consenso sobre cuál es la más eficaz. Por ello, queremos describir nuestra experiencia con la escisión endoscópica.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Realizamos un análisis retrospectivo de los casos de QDSA tratados en nuestro centro durante los últimos 5 años (2014-2019). Analizamos la historia clínica de cada paciente recogiendo las características demográficas, gestacionales y neonatales, comorbilidades, intervenciones quirúrgicas, antecedentes de intubación, clínica al diagnóstico, modalidad de tratamiento, evolución postquirúrgica, seguimiento en consulta y controles endoscópicos.

La escisión endoscópica se realiza bajo anestesia general con visión directa mediante óptica rígida de 0°. Tras la instilación de lidocaína 2% atomizada en laringe, se explora la vía aérea en ventilación espontánea para evaluar el grado de obstrucción (Fig. 1). Una vez localizado el origen del quiste se profundiza al paciente y se asiste la ventilación mediante *jet* transtraqueal o tubo endotraqueal fino. Se realiza la es-

cisión y destechamiento del quiste empleando instrumental de microcirugía laríngea (Fig. 2). Si es necesario, se realiza hemostasia con lentinas impregnadas en adrenalina.

## RESULTADOS

Se recogieron 4 pacientes durante el periodo de estudio con las características que se detallan en la Tabla I.

Únicamente uno de los pacientes fue mujer y el 50% presentaban antecedentes de prematuridad. La mediana de edad y peso al diagnóstico fue de 6,5 meses (6-8) y 5,9 kg (3,6-7), respectivamente.

Todos los pacientes presentaron al menos un episodio de intubación cuyo motivo fue la realización de una intervención quirúrgica en todos los casos. La mediana de tiempo entre la última intubación y el diagnóstico fue de 119,5 días (71-171), siendo la clínica inicial similar en todos los pacientes con estridor bifásico y dificultad respiratoria progresiva.

La fibroscopia fue diagnóstica permitiendo además estimar el grado de obstrucción de la vía aérea. El 50% de los quistes fueron izquierdos y el otro 50% bilaterales posteriores. No se encontró en ninguno de los pacientes hallazgos compatibles con estenosis subglótica concomitante. Los datos endoscópicos y postoperatorios se detallan en la Tabla II.

**Tabla I. Características demográficas y clínicas de los pacientes.**

Paciente	Edad gestacional	Sexo	Edad al diagnóstico	Peso al diagnóstico	Intubaciones previas	Días desde la última intubación	Motivo de última intubación
1	32 semanas	M	6 meses	6,3 kg	2	171	Cirugía
2	39 semanas	V	6 meses	5,5 kg	4	139	Cirugía
3	30 semanas	V	7 meses	3,6 kg	1	71	Cirugía
4	38 semanas	V	8 meses	7 kg	1	100	Cirugía

**Tabla II. Hallazgos endoscópicos, tratamiento, evolución y seguimiento.**

Paciente	Obstrucción	Localización	Tratamiento	Intubación	Ingreso	Recidiva	Seguimiento
1	> 50%	Posterior bilateral	Escisión	0 horas	7 días	No	6 meses
2	50%	Posterior bilateral	Dilatación	48 horas	6 días	Sí	1 mes
			Escisión	3 horas	6 días	No	5 meses
3	> 75%	Anterolateral izquierdo	Escisión	24 horas	9 días	No	36 meses
4	50%	Posterior izquierdo	Escisión	24 horas	7 días	No	42 meses

En el 75% de los pacientes se realizó una escisión endoscópica como tratamiento inicial logrando una desobstrucción inmediata de la vía aérea y permitiendo una extubación temprana. En el caso 2 se realizó inicialmente drenaje y dilatación con balón por parte de otro servicio, detectándose recidiva del quiste al mes del procedimiento. Se optó por la escisión endoscópica como tratamiento de rescate con buen resultado y extubación temprana. No hubo recidivas en el resto de los pacientes durante la mediana de 17,5 meses seguimiento (6-42).

## DISCUSIÓN

En este estudio, recogemos durante un periodo de 5 años una serie de 4 pacientes con QDSA tratados mediante escisión endoscópica. Los pacientes presentaron características similares al resto de series publicadas<sup>(2-6)</sup> en cuanto a los antecedentes de prematuridad, intubación y el tiempo hasta el desarrollo de los síntomas. La escisión endoscópica fue segura, eficaz y mostró una baja tasa de recidiva durante el seguimiento.

Aunque es poco lo que se conoce sobre la fisiopatología de los QDSA, parecen tener una etiología similar a la estenosis subglótica<sup>(5,7)</sup>. El daño producido en la mucosa laríngea por la intubación y la fibrosis subepitelial posterior impide la correcta evacuación de las glándulas de la submucosa ocasionando una dilatación de los conductos ductales y la formación de los quistes. Este mecanismo fisiopatológico explicaría el decaje característico entre el episodio de intubación y el inicio de los síntomas. La localización de estas lesiones concuerda con su origen iatrogénico, dado que tienen lugar en la región subglótica (zona más estrecha de la vía aérea pediátrica) con mayor preferencia por el lado izquierdo (la intubación tiene lugar desde el lado derecho).

El retraso diagnóstico se debe al mecanismo fisiopatológico, el larvado curso clínico y la sintomatología compatible con otros cuadros como bronquiolititis que tienen lugar de forma típica en la misma franja de edad. El tiempo desde el episodio de intubación hasta el diagnóstico en nuestra serie fue de mediana de 119,5 días concordante con la de otras series como la de Lim y cols.<sup>(2)</sup> (mediana de 210 días), Agada y cols.<sup>(4)</sup> (mediana de 120 días), Watson y cols.<sup>(3)</sup> (mediana de 127,5 días) o Halimi y cols.<sup>(6)</sup> (media de 246 días).

Lim y cols.<sup>(2)</sup>, en 2003, publicaron un estudio retrospectivo con 55 casos de QDSA siendo la mayor serie publicada hasta la fecha. En su serie describieron una recidiva del 43% a lo largo de 6 meses de mediana de seguimiento, tras tratamiento con láser CO<sub>2</sub> o microcirugía. Sin embargo, los datos no se estratificaron según la modalidad de tratamiento. Watson y cols.<sup>(3)</sup> describieron una recidiva del 50% tras tratamiento mediante marsupialización con un seguimiento de 4 meses, Agada y cols.<sup>(4)</sup> una recidiva del 29% tras la marsupialización de los quistes y Halimi y cols.<sup>(6)</sup> una recidiva del 65% tras tratamiento con láser CO<sub>2</sub> con un seguimiento medio de 3 años.

En nuestro estudio, que presenta un seguimiento similar a los ya citados, ningún paciente presentó recidiva de los QDSA cuando la técnica empleada fue la escisión endoscópica. Este tratamiento permite liberar el contenido del quiste, solucionando la obstrucción de la vía aérea y del conducto glandular, sin ocasionar daño a la mucosa subyacente. Esto podría explicar la baja tasa de recidiva que hemos observado con respecto a otras modalidades establecidas como el láser CO<sub>2</sub><sup>(2,8)</sup> y nos ha permitido progresivamente tender a una extubación más precoz al disminuir el edema de la vía aérea asociado al procedimiento.

Nuestro estudio presenta como limitaciones su carácter retrospectivo, el escaso número de pacientes dada la natura-

leza de esta patología y la falta de información en cuanto a los episodios previos de intubación dado que los 4 pacientes fueron intubados en otros centros.

Aunque la escisión endoscópica parece un tratamiento eficaz, la comparación con otros trabajos similares en la literatura resulta difícil por la baja incidencia, la variabilidad de técnicas y la falta de estratificación según la modalidad de tratamiento. Para poder responder esta cuestión, sería necesario realizar un ensayo clínico aleatorizado que dada la baja frecuencia de esta patología requeriría un diseño multicéntrico. No obstante, los resultados que hemos obtenido son prometedores.

La tomografía de coherencia óptica está permitiendo conocer mejor la evolución del daño por intubación en la mucosa laríngea y traqueal de forma no invasiva<sup>(9,10)</sup>, abriendo nuevas posibilidades en la investigación y el tratamiento de ésta y otras patologías de la vía aérea. Probablemente en un futuro cercano podamos ser capaces de predecir qué pacientes pueden desarrollar QDSA, recidivas de los mismos o estudiar en un modelo experimental el tratamiento más eficaz.

## CONCLUSIÓN

Los QDSA son una causa poco frecuente de obstrucción de la vía aérea que se debe incluir en el diagnóstico diferencial de aquellos pacientes con estridor y antecedente de intubación junto con la estenosis subglótica. La escisión endoscópica parece ser un tratamiento eficaz con un bajo índice de recidiva y complicaciones asociadas.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Wigger HJ, Tang P. Fatal laryngeal obstruction by iatrogenic subglottic cyst. *J Pediatr*. 1968; 72: 815-20.
2. Lim J, Hellier W, Harcourt J, Leighton S, Albert D. Subglottic cysts: the Great Ormond Street experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2003; 67: 461-5.
3. Watson GJ, Malik TH, Khan NA, Sheehan PZ, Rothera MP. Acquired paediatric subglottic cysts: a series from Manchester. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2007; 71: 533-8.
4. Agada FO, Bell J, Knight L. Subglottic cysts in children: a 10-year review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2006; 70: 1485-8.
5. Ransom ER, Antunes MB, Smith LP, Jacobs IN. Microdebrider resection of acquired subglottic cysts: case series and review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009; 73: 1833-6.
6. Halimi C, Nevoux J, Denoyelle F, Garabedian EN, Leboulanger N. Acquired subglottic cysts: management and long term outcome. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2012; 76: 589-92.
7. Wei JL, Bond J. Management and prevention of endotracheal intubation injury in neonates. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2011; 19: 474-7.
8. Jaryszak EM, Collins WO. Microdebrider resection of bilateral subglottic cysts in a pre-term infant: a novel approach. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009; 73: 139-42.
9. Sharma GK, Ahuja GS, Wiedmann M, Osann KE, Su E, Heidari AE, et al. Long-range optical coherence tomography of the neonatal upper airway for early diagnosis of intubation-related subglottic injury. *Am J Respir Crit Care Med*. 2015; 192: 1504-13.
10. Volgger V, Sharma GK, Jing JC, Peaks YS, Loy AC, Lazarow F, et al. Long-range Fourier domain optical coherence tomography of the pediatric subglottis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2015; 79: 119-26.