

Enfisema retrofaríngeo espontáneo pediátrico: reporte de un caso y análisis comparativo de la literatura existente en población pediátrica



Pediatric spontaneous retropharyngeal emphysema: A case report and comparative analysis of the existing literature

Sra. Editora:

El enfisema retrofaríngeo espontáneo (ERE) se caracteriza por la presencia de aire ectópico a nivel retrofaríngeo sin una etiología subyacente clara. Se considera un diagnóstico de exclusión, y se califica como altamente infrecuente, con reportes aislados en la literatura científica. Hasta la fecha, los reportes pediátricos son excepcionales¹⁻⁵.

Presentamos el caso de un varón de 8 años sin antecedentes médicos, valorado en urgencias por un cuadro súbito de dolor torácico con irradiación cervical, que apareció mientras jugaba al fútbol. El paciente refería empeoramiento con el decúbito y con la ingesta. No refería antecedentes traumáticos recientes ni ingesta de cuerpos extraños. A la exploración física se constató buen estado general, con estabilidad hemodinámica y respiratoria. El paciente no presentó fiebre en ningún momento. No se objetivaron alteraciones óseas, pero sí crepitación subcutánea cervical. No se observó abombamiento de pilares faringoamigdalinos, y la úvula se encontraba centrada. La analítica de sangre mostró leucocitosis y neutrofilia sin elevación de reactantes de fase aguda. Se realizó una radiografía cervical lateral que mostró aire en el espacio retrofaríngeo, sin aumento del espacio retrofaríngeo (fig. 1, izquierda). La nasolarinoscopia no mostró alteraciones. No se realizó tránsito esofagogastro-duodenal. El paciente permaneció ingresado 24 horas con analgesia y sueroterapia intravenosas y sin oxigenoterapia, con resolución de la sintomatología. Una radiografía ambulatoria a los 15 días constató la resolución prácticamente completa del cuadro (fig. 1, derecha).

La tabla 1 muestra los casos de ERE pediátricos publicados hasta la fecha. Se observa que la mayoría fueron mujeres adolescentes, y que en muchos de los casos hubo un desencadenante identificable (tos o actividad deportiva). Dos de los pacientes presentaron cambios en las características de la voz. La mayoría de casos debutaron como un dolor torácico o cervical súbito. La presencia de febrícula o fiebre se documentó en dos de los casos, y la presencia de leucocitosis y neutrofilia, en un caso. La nasolarinoscopia solo mostró una discreta protrusión de la pared posterior faríngea en uno de los pacientes, siendo en el resto normal. En tres de los pacientes se realizó una TC. Todos los casos fueron manejados de forma conservadora y tuvieron una evolución favorable.



Figura 1 Izquierda: Radiografía lateral cervical donde se observa la presencia de aire ectópico en el espacio retrofaríngeo (cabeza de flecha blanca). Derecha: Radiografía lateral cervical realizada 15 días después, con resolución prácticamente completa de los hallazgos.

En relación con el caso reportado por Lee et al.⁵, la paciente, asmática, tuvo una presentación atípica consistente en trabajo respiratorio, desaturación y neumomediastino asociado. Creemos que esta paciente probablemente presentó un neumomediastino secundario al asma con extensión cervical ulterior, y no creemos por tanto que sea un ERE puro.

La literatura en relación con la etiopatogenia y la fisiopatología del ERE es escasa. Macklin et al.⁶ publicaron un trabajo en el que postulaban que el origen podía radicar en un enfisema intersticial pulmonar secundario a una sobredistensión de los alveolos marginales y a una disminución del calibre de los vasos perialveolares, generándose un gradiente de presión entre ambas estructuras que condicionaría la rotura alveolar a nivel basal y la salida de aire al espacio intersticial. Este aire se diseminaría siguiendo el camino de menor resistencia a través de las vainas perivasculares, fundamentalmente al mediastino (como en los casos de Cho et al.³ y de Lee et al.⁵), aunque con posibilidad de extensión a la región cervical.

En relación con la sobredistensión de alveolos marginales, la tos y el esfuerzo deportivo reportados en los casos de la serie pueden haber sido los factores que condicionasen el desarrollo de este mecanismo fisiopatológico. Igualmente, este mecanismo podría estar en relación con el neumomediastino asociado a asma reportado por Lee et al.⁵.

En conclusión, el ERE parece ser una entidad nosológica propia e infrecuente que predomina en mujeres adolescentes. Su tratamiento incluye la dieta absoluta, la hidratación intravenosa, la analgesia y el reposo, pudiéndose recurrir a la oxigenoterapia suplementaria como un recurso terapéutico adicional. Aunque se trate de una entidad benigna, es imperativo recordar que se trata de un diagnóstico de exclusión y que deben descartarse todas las potenciales causas

Tabla 1 Casos reportados de enfisema retrofaríngeo espontáneo en población pediátrica y sus características clínicas

Autor(es)	Antecedentes médicos	Sociodemografía	Evento inicial	Presentación clínica	Alteraciones clínicas o analíticas	NLC	TC	Tratamiento	Evolución
Marín Garrido et al. (2003) ⁴	No	Varón. 13 años	Actividad deportiva	Dolor torácico y cervical súbitos. Alteración de la voz	Febrícula (37,5 °C). AS no reportada	Discreta protrusión de la pared posterior faríngea	Sí	Reposo. Antibioterapia intravenosa	Favorable (resolución radiológica en 48 horas)
Lee et al. (2005) ⁵	Asma	Mujer. 12 años	No	Dificultad respiratoria. Dolor torácico. Alteración de la voz	Desaturación, taquipnea, fiebre (38,2 °C)	Normal	No	Reposo. Oxígeno. Antibióticos. Broncodilatadores	Favorable (resolución clínica en 7 días)
Haro et al. (2014) ²	No	Mujer. 14 años	Tos	Dolor cervical súbito	Fiebre (39 °C). AS sin alteraciones	Normal	No	Reposo. Analgesia. Oxígeno suplementario	Favorable
Cho et al. (2016) ³	No	Mujer. 14 años	Tos	Odinofagia	Afebril. AS no reportada	Normal	Sí	Reposo. Dieta absoluta. Oxígeno suplementario. Antibioterapia intravenosa	Favorable (3 días de ingreso)
Chi et al. (2018) ¹	No	Mujer. 13 años	No	Dolor cervical	Afebril. Leucocitosis. Neutrofilia	Normal	Si	Analgesia. Monitorización. Dieta absoluta	Favorable (resolución de síntomas en 7 días)
Arredondo Montero et al. (2022)	No	Varón. 8 años	Actividad deportiva	Dolor cervical súbito	Afebril. Leucocitosis. Neutrofilia	Normal	No	Analgesia. Monitorización. Dieta absoluta	Favorable (24 horas de ingreso, resolución radiológica en 15 días)

AS: analítica de sangre; NLC: nasolaringoscopia; TC: tomografía computarizada.

de aire ectópico en el espacio retrofaríngeo, en especial aquellas que precisan tratamiento urgente, como la perforación esofágica. Ante la aparición de complicaciones como la mediastinitis o la obstrucción de vías respiratorias, el tratamiento quirúrgico debe ser considerado.

Bibliografía

- Chi TH, Hung CC, Chen RF, Yuan CH, Chen JC. Spontaneous retropharyngeal emphysema: A case report. *Niger J Clin Pract.* 2017;20:1213–5, <http://dx.doi.org/10.4103/njcp.njcp.3.16>. PMID: 29072250.
- Haro Diaz AM, Toledo del Castillo B, García Morín M, Vázquez López P. Enfisema retrofaríngeo espontáneo, una entidad rara a considerar [Spontaneous retropharyngeal emphysema: A rare clinical entity]. *An Pediatr (Barc).* 2014;81:e66–7,

<http://dx.doi.org/10.1016/j.anpedi.2014.04.021>. PMID: 25034192.

- Cho DY, Aaron GP, Shepard KG. Spontaneous retropharyngeal and mediastinal emphysema. *Clin Exp Otorhinolaryngol.* 2016;9:178–81, <http://dx.doi.org/10.21053/ceo.2014.01543>. PMID: 27090269; PMCID: PMC4881326.
- Marín Garrido C, Garzón Calles JA, Naya Gálvez MJ, Esteban Revenga JM, López García C. Neumomediastino y enfisema cervical espontáneos con alteración en la voz [Spontaneous cervical emphysema and pneumomediastinum with voice disorders]. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2003;54:151–6, [http://dx.doi.org/10.1016/s0001-6519\(03\)78398-8](http://dx.doi.org/10.1016/s0001-6519(03)78398-8). PMID: 12802992.
- Lee CC, Chen TJ, Wu YH, Tsai KC, Yuan A. Spontaneous retropharyngeal emphysema and pneumomediastinum presented with signs of acute upper airway obstruction. *Am J Emerg Med.* 2005;23:402–4, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajem.2005.02.011>. PMID: 15915427.

6. Macklin MT, Macklin CC. Malignant interstitial emphysema of the lungs and mediastinum as an important occult complication in many respiratory diseases and other conditions: An interpretation of the clinical literature in the light of laboratory experiment. *Medicine*. 1944;23:281–358.

Javier Arredondo Montero^{a,*}, Yurema González Ruiz^b
y Mónica Bronte Anaut^c

^a Servicio de Cirugía Pediátrica, Hospital Universitario de Navarra, Pamplona, España

^b Servicio de Cirugía Pediátrica, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España

^c Servicio de Patología, Hospital Universitario de Araba, Vitoria-Gasteiz, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: Javier.montero.arredondo@gmail.com (J. Arredondo Montero).

<https://doi.org/10.1016/j.anpedi.2022.10.001>
1695-4033/ © 2022 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Infeción recurrente por *Clostridium difficile* tratada con bezlotoxumab[☆]



Recurrent *Clostridium difficile* infection treated with bezlotoxumab

Sra. Editora:

La infección por *Clostridium (Clostridioides) difficile* es una enfermedad mediada por toxinas. Su patógeno, el *C. difficile*, es un bacilo grampositivo, anaerobio estricto. Sus factores de virulencia principales son las toxinas A y B, codificadas por los genes *tcdA* y *tcdB*, respectivamente¹. Esta infección constituye la primera causa de diarrea intrahospitalaria asociada al uso de antibióticos y su incidencia está aumentando en la población extrahospitalaria, constituyendo un importante problema de salud pública tanto en términos de morbilidad como económicos².

La *European Society of Clinical Microbiology and Infectious Diseases* define la infección por *C. difficile* como un cuadro consistente en diarrea, íleo o megacolon tóxico junto con hallazgo microbiológico de toxinas o *C. difficile* toxigénico en heces sin evidencia de otra etiología. La recurrencia se define como la reaparición de los síntomas en las ocho semanas posteriores al primer episodio y la infección grave como un episodio de infección por *C. difficile* con necesidad de cuidados intensivos, colectomía o muerte³.

El tratamiento habitual de la infección por *C. difficile* es el metronidazol o la vancomicina oral, tanto para casos leves como para los graves, siendo una alternativa también aceptada la rifaximina y otra el trasplante de microbiota fecal en cuadros recurrentes³. Se han desarrollado estrategias para disminuir las recurrencias, y entre ellas se encuentra el bezlotoxumab, un anticuerpo monoclonal dirigido contra la toxina B⁴.

El uso del bezlotoxumab fue aprobado en humanos tras los resultados de los estudios MODIFY I y II, estudios internacionales, multicéntricos, doble-ciegos, aleatorizados y controlados por placebo⁵. Estos estudios demostraron que el bezlotoxumab (10 mg/kg en dosis única) se asocia a una

reducción mayor que placebo de la recurrencia de la infección por *C. difficile* y un perfil de seguridad similar a este en adultos.

Los estudios MODIFY se realizaron en población adulta (> 18 años) que recibía el tratamiento estándar antibiótico (metronidazol, vancomicina oral o fidaxomicina) y demostraron que su efecto era mayor en poblaciones con al menos un factor de riesgo⁶. Los factores de riesgo para la recurrencia fueron: edad ≥ 65 años, historia de infección por *C. difficile* en los 6 meses previos, inmunodeficiencia, infección por *C. difficile* grave o aislamiento de una cepa relacionada con peores resultados⁶. Además, se demostró que el bezlotoxumab redujo la recurrencia de infección por *C. difficile* durante un periodo de 12 semanas⁴. En población pediátrica su uso aún no está aprobado.

Presentamos el caso de una adolescente mujer de 12 años afecta de linfoma no Hodgkin a nivel prepilórico que ocasiona estenosis pilórica con imposibilidad de nutrición enteral (ingesta exclusiva de líquidos). La paciente presenta tres episodios de infección por *C. difficile* en un periodo de 3 meses. Tanto la primera infección como las dos recurrencias ocurrieron tras la administración de antibioterapia de amplio espectro por neutropenia febril, los dos primeros episodios presentaron como sintomatología diarreas. El primero fue tratado con metronidazol y la primera recurrencia con vancomicina oral. El tercer episodio asoció al cuadro diarreico importante dilatación colónica, íleo, síndrome de respuesta inflamatoria sistémica, coagulación intravascular diseminada y tromboembolismo pulmonar con empeoramiento clínico importante y necesidad de traslado y tratamiento en la unidad de cuidados intensivos pediátricos pese al inicio precoz de tratamiento antibiótico.

Ante la presencia de infección por *C. difficile* grave y tratarse de una segunda recidiva, se decide añadir al tratamiento bezlotoxumab como uso compasivo, con una dosis única de 10 mg/kg intravenosa. Se objetiva mejoría clínica progresiva con resolución completa del cuadro y toxinas en heces negativas y sin asociar efectos secundarios a su administración. En la actualidad, 7 meses tras el episodio, ha precisado un nuevo ciclo de antibioterapia de amplio espectro por neutropenia febril, pero sin nuevas infecciones por *C. difficile*.

En conclusión, la infección por *C. difficile* representa un problema de salud pública, también en pediatría. Muchos

[☆] Presentación: XIV Congreso Nacional de Oncohematología Pediátrica.