

# Síndrome de apneas obstructivas durante el sueño (SAOS) secundario a un linfoma faríngeo. Mejoría con tratamiento con presión continua de la vía aérea superior (CPAP)

G. Espinosa, A. Alarcón\*, A. Morelló, I. Vilaseca\*\*, J.R. Ayuso\*\*\* y J.M. Montserrat\*

Servicios de \*Neumología y Alergia Respiratoria, \*\*Otorrinolaringología y \*\*\*Radiodiagnóstico. Hospital Clínic i Provincial. Facultad de Medicina. Universidad de Barcelona.

La apnea obstructiva del sueño (SAOS) es un síndrome caracterizado por la presencia de múltiples episodios de obstrucción de las vías aéreas superiores (VAS) durante el sueño. Durante el día, los pacientes aquejan hipersomnia, embotamiento y falta de concentración que se acompañan, característicamente, de ronquidos nocturnos.

Se presenta el caso de un paciente afectado de linfoma de Hodgkin sin remisión completa y recidiva faríngea que provocaba un SAOS. Clínicamente, presentaba somnolencia diurna muy acusada, acompañada de trastornos de conducta. Entre las exploraciones complementarias destacaban unas asas de flujo-volumen, indicativas de inestabilidad de la VAS. Una TAC cervical mostró una masa prevertebral linfomatosa faríngea, que producía una reducción acusada del área de la VAS. Esta aumentó considerablemente de tamaño tras la aplicación de presión continua positiva (CPAP) en la VAS, lo que normalizó el sueño y provocó una mejoría importante de la clínica del paciente. Posteriormente y tras la quimioterapia, desapareció el SAOS y el paciente pudo abandonar el tratamiento con CPAP.

**Palabras clave:** Síndrome de apneas obstructivas del sueño (SAOS). Linfoma faríngeo. Presión positiva continua de la vía aérea (CPAP).

*Arch Bronconeumol 1996; 32: 547-549*

## Introducción

El síndrome de apneas obstructivas durante el sueño (SAOS) se caracteriza por presentar un cuadro de somnolencia, trastornos neuropsiquiátricos y cardiorrespiratorios secundarios a repetidos episodios de obstrucción de la vía aérea superior durante el sueño. Éstos provocan constantes desaturaciones de la oxihemoglobina y despertares transitorios que dan lugar a un sueño no re-

## Obstructive sleep apnea syndromes (OSAS) secondary to pharyngeal lymphoma

Obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) is characterized by multiple episodes of upper airway (UA) obstruction during sleep. Patients experience daytime hypersomnia, sluggishness and inability to concentrate; snoring at night is common.

We report the case of a man with Hodgkin's lymphoma without full remission and with pharyngeal recidivism leading to OSAS. He experienced marked diurnal hypersomnia accompanied by behavior disorders. Examination revealed flow-volume OSAS, suggesting UA instability. Cervical computed tomography showed a prevertebral lymphomatous mass in the pharynx causing significant UA compression. UA size increased considerably after use of continuous positive airway pressure (CPAP), which normalized sleep and produced significant relief of symptoms. Later, after chemotherapy, OSAS resolved and the patient was able to abandon CPAP treatment.

**Key words:** Obstructive sleep apnea syndrome (OSAS). Pharyngeal lymphoma. Continuous positive airway pressure (CPAP).

parador<sup>1</sup>. La génesis de las apneas obstructivas hay que buscarla, en la mayoría de casos, en anomalías fisiopatológicas de los mecanismos que regulan la luz de la vía aérea superior durante el sueño. Concretamente, en los desequilibrios entre los factores "estabilizadores" y los "colapsantes" de la vía aérea superior, a favor de estos últimos<sup>2-4</sup>. En ocasiones, sin embargo, es posible definir un factor anatómico, como en el paciente que nos ocupa, que puede desencadenar la oclusión durante el sueño, pero no durante la vigilia<sup>5</sup>.

Se presenta el caso de un paciente afectado de linfoma faríngeo que provocó un SAOS al reducir el área de la vía aérea superior y que mejoró clínicamente con CPAP. Mediante técnicas de imagen se demuestra el aumento significativo del área faríngea con aplicación de

Estudio subvencionado por una beca FIS (92/0771) y por la Comissió Interdepartamental de Recerca i Innovació Tecnològica (CIRIT).

Correspondencia: Dr. J.M. Montserrat. Servicio de Neumología y Alergia Respiratoria. Hospital Clínic i Provincial. Villarroel, 170. 08036 Barcelona.

Recibido: 13-2-96; aceptado para su publicación: 23-4-96.

presión continua positiva (CPAP). Se ha realizado una revisión a través del sistema MEDLINE (1986-noviembre 1995) en el que se refieren diversos casos de SAOS secundarios a etiología linfomatosa, pero ninguno de ellos fue tratado con CPAP.

### Observación clínica

Paciente de 46 años de edad, con antecedentes patológicos de linfoma de Hodgkin estadio III diagnosticado en mayo de 1993, a raíz de una biopsia, de una adenopatía supraclavicular izquierda. Se realizó tratamiento con quimioterapia y radioterapia, con remisión parcial. El paciente reingresó en junio de 1994 por recidiva faríngea. Clínicamente, refería sensación de boca "pastosa", obstrucción nasal y rinolalia. En la exploración física destacaba la afectación del estado general con febrícula. La exploración del área otorrinolaringológica mostró en la faringoscopia un paladar discretamente abombado con laringoscopia indirecta normal. En la rinoscopia posterior se apreció un abombamiento de la pared lateral derecha y posterior de rinofaringe. En la biopsia se objetivaron hallazgos compatibles con linfoma de Hodgkin. Una TAC cervical mostró masa linfomatosa prevertebral afectando a rino, oro e hipofaringe que reducía significativamente la luz de la vía aérea (fig. 1). Durante el ingreso se apreció alteración de la conducta del paciente, con agitación y episodios de desorientación, todo ello asociado a una marcada hipersomnía diurna. Durante la noche, el enfermo roncaba de manera importante y se comprobaron numerosas apneas. Ante esta sintomatología y el contexto clínico se sospechó un SAOS. Para su diagnóstico se practicó una polisomnografía que puso de manifiesto un índice apnea/hipopnea hora de 53. Las asas de flujo-volumen fueron indicativas de inestabilidad de la vía aérea superior (fig. 2). Una nueva polisomnografía demostró que con 13 cm de H<sub>2</sub>O en la CPAP desaparecían todos los fenómenos respiratorios durante el sueño (índice apnea/hipopnea hora de 3). Además, se practicó una TAC cervical con y sin CPAP, objetivándose una ampliación superior al 50% en el área de la vía aérea, cuando el paciente era sometido a CPAP (fig. 1). Tras el uso continuado durante la noche de CPAP la sintomatología clínica desapareció. El paciente fue sometido a poliquimioterapia con reducción del tamaño de la infiltración linfomatosa, por lo que al cabo de un mes ya no requirió el tratamiento con CPAP. La nueva polisomnografía tras tratamiento mostró un índice apnea/hipopnea hora de 9.

### Discusión

El SAOS se produce por anomalías de los mecanismos que regulan la luz de la vía aérea superior durante el sueño. La presión alveolar negativa inducida por la contracción de los músculos inspiratorios es la responsable de la entrada de aire ambiente hasta los alvéolos. Sin embargo, esta misma presión negativa actúa sobre las paredes flexibles de la faringe induciendo su colapso, que no se produce habitualmente gracias a la acción de los músculos de las vías aéreas superiores (VAS). Éstos muestran contracciones fásicas que preceden a la contracción de los músculos inspiratorios, lo que permite aumentar la rigidez de las VAS e impedir su colapso. Durante el sueño, la contracción anticipada de los músculos de las VAS, al mismo tiempo que su tono de base, disminuyen de intensidad, por lo que su estabilidad es menor. A partir de esta base fisiopatológica, dos facto-

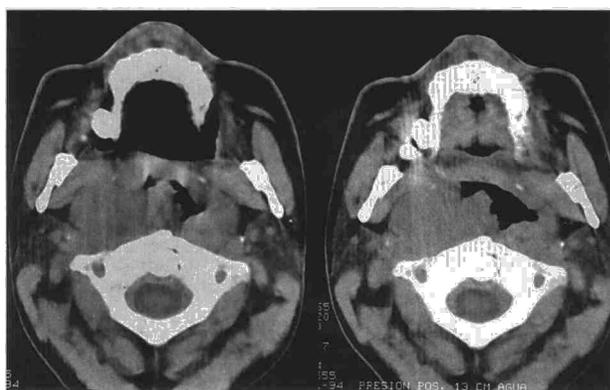


Fig. 1. Imágenes de la TAC cervical en las que se aprecian una masa linfomatosa prevertebral reduciendo el área de la VAS (izqda.) y el mismo corte con presión positiva de 13 cmH<sub>2</sub>O, demostrando el aumento significativo del área (dcha.).

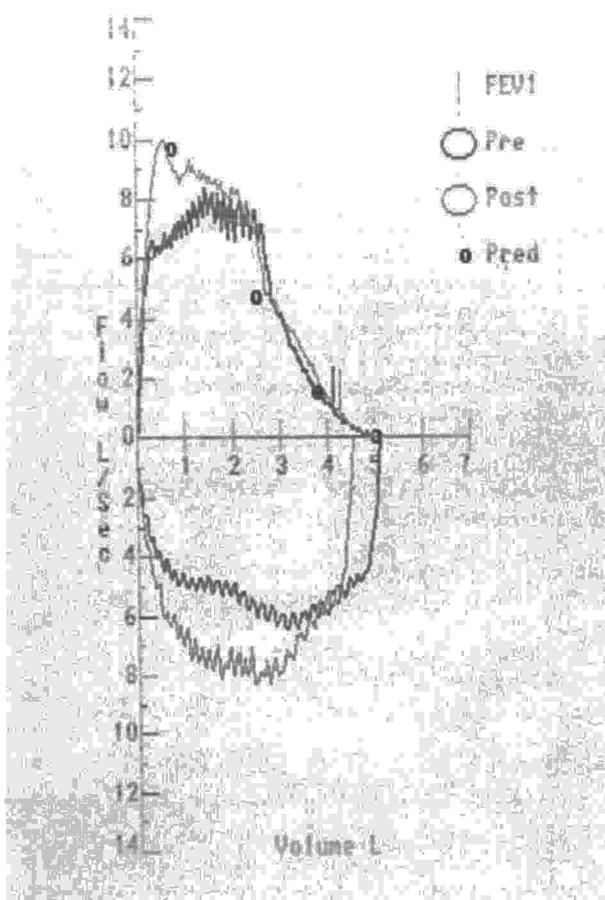
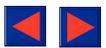


Fig. 2. Asas de flujo-volumen en las que se objetiva la morfología en dientes de sierra sugestiva de disfunción de la vía aérea superior.

res desempeñan un papel importante en la génesis del SAOS. Por un lado, cualquier factor anatómico agregado podrá desencadenar oclusión durante el sueño pero no durante la vigilia. El tratamiento sería el específico de cada caso (cirugía en la mayoría de ellos para sol-



ventar la disminución del área de las VAS). Por otro, existen en la mayoría de los casos factores funcionales todavía no bien aclarados (hipotonía muscular asociada a los diferentes estadios del sueño o alteraciones en el control del tono muscular) que ocasionan la aparición durante el sueño de apneas. Son este tipo de enfermos los que se beneficiarán en mayor medida del uso de la CPAP.

El tratamiento del SAOS mediante CPAP por vía nasal fue descrito por primera vez en 1981 por Sullivan et al<sup>6</sup>. En la actualidad, es considerado el tratamiento de elección para el SAOS. La CPAP elimina las apneas e hipopneas, mejora las desaturaciones nocturnas, normaliza la arquitectura del sueño y todo ello contribuye a reducir la morbimortalidad en estos enfermos<sup>7,8</sup>. Esencialmente se trata de administrar por vía nasal un flujo continuo de aire para provocar una presión positiva continua en la vía aérea que actúa a nivel faríngeo como una válvula neumática; esto es, estabilizándola y manteniendo sus paredes separadas para evitar su colapso<sup>6</sup>.

La etiología linfomatosa causante de este cuadro aparece referida en anteriores artículos de la bibliografía<sup>9-12</sup>. En uno de ellos, el SAOS es incluso la forma de presentación del linfoma<sup>9</sup>. En otro es causa de exacerbación de la clínica en un paciente ya diagnosticado de SAOS<sup>10</sup>. Todos tienen en común el ser linfomas no hodgkinianos, en general de bajo grado de malignidad y afectar estructuras bien diferenciadas del sistema linfático de esta región anatómica, como las amígdalas palatinas o bien ganglios linfáticos (cervicales o submandibulares). La respuesta a la cirugía (amigdalectomía), o bien a la quimioterapia, supuso la resolución del cuadro y en ninguno de ellos aparece referido el uso de CPAP en espera de tratamiento específico.

Los resultados obtenidos en la TAC con CPAP respecto al estado basal coinciden con los expuestos en otros trabajos (en los que el SAOS tenía un origen funcional y no anatómico), es decir, aumento del área de la VAS más importante en el eje lateral que en el anteroposterior y en dirección craneocaudal<sup>13-15</sup>.

En el paciente que presentamos, el SAOS fue producto de la reducción de la VAS secundaria a la recidiva del linfoma. Debido a la intensidad del cuadro clínico y en espera de la respuesta al tratamiento, se intentó con éxito el uso de CPAP.

Así pues, en pacientes con clínica manifiesta de SAOS y un factor anatómico responsable, el tratamiento con CPAP debe tenerse en cuenta hasta que el tratamiento específico surta efecto.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Guilleminault C, Dement WC. Sleep apnea syndromes. Nueva York: Alan Liss Inc., 1978.
2. Hoffstein V, Zamel N, Phillipson EA. Long volumes dependence of pharyngeal cross-sectional area in patients with obstructive sleep apnea. *Am Rev Respir Dis* 1984; 130: 175-178.
3. Brown IG, Bradley TD, Phillipson EA, Zamel N, Hoffstein V. Pharyngeal compliance in snoring subjects with and without obstructive sleep apnea. *Am Rev Res Dis* 1988; 132: 211-215.
4. Brown IB, McClean PA, Broucher R, Zamel N, Hoffstein V. Changes in pharyngeal cross-sectional area with posture and application of continuous positive airway pressure in patients with obstructive sleep apnea. *Am Rev Respir Dis* 1987; 136: 628-663.
5. Langevin B, Sukkar F, Leger P, Guez A, Robert D. Sleep apnea syndrome (SAS) of specific etiology: review and incidence from a sleep laboratory. *Sleep* 1992; 15: 25-32.
6. Sullivan CE, Issa FG, Berthon-Jones M, Eves L. Reversal of obstructive sleep apnea by continuous positive airway pressure through the nares. *Lancet* 1981; 1: 862-865.
7. Sullivan CE, Issa FG, Berthon-Jones M, McCauley VB, Costas LVJ. Home treatment of obstructive sleep apnea with continuous positive airway pressure applied through a nose-mask. *Bull Eur Physiopathol Respir* 1984; 20: 49-54.
8. He J, Kryger MH, Zorick FJ, Conway W, Roth T. Mortality and apnea index in obstructive sleep apnea: experience in 385 male patients. *Chest* 1988; 94: 9-14.
9. Carr CM. Non-Hodgkin's lymphoma presenting initially as a sleep-apnea syndrome. *Ala Med Jul* 1987; 57: 28-29.
10. Zorick F, Roth T, Kramer M, Flessa H. Exacerbation of upper-airway sleep apnea by lymphocytic lymphoma. *Chest* 1988; 77: 689-690.
11. Orr WC, Martin RJ. Obstructive sleep apnea associated with tonsillar hypertrophy in adults. *Arch Intern Med* 1981; 141: 990-992.
12. King M, Gleeson M, Rees J. Obstructive sleep apnea and tonsillar lymphoma. *Br Med J* 1987; 294: 1.605-1.606.
13. Haponik EF, Smith PL, Bohlman ME, Allen RP, Goldman SM, Bleecker ER. Computerized tomography in obstructive sleep apnea. *Am Rev Respir Dis* 1983; 127: 221-226.
14. Surratt PM, Dee P, Atkinson RL, Armstrong P, Nilhoit SC. Fluoroscopic and computed tomographic features of the pharyngeal airway in obstructive sleep apnea. *Am Rev Respir Dis* 1983; 127: 487-492.
15. Kuna ST, Bedi DG, Ryckman C. Effect of nasal airway positive pressure on upper airway size and configuration. *Am Rev Respir Dis* 1988; 138: 969-997.