

neumonía, siendo tratado con ertapenem, clindamicina, corticoides y broncodilatadores. 7 días tras el alta es traído a nuestro hospital ante deterioro progresivo. A la exploración física presentaba caquexia, crepitantes en hemitórax izquierdo y abdomen ligeramente doloroso a la palpación. En la analítica destacaba aumento de reactantes de fase aguda, sin eosinofilia. La tomografía axial computarizada mostró una consolidación en lóbulo superior izquierdo, con áreas de cavitación de paredes irregulares (fig. 1A) y marcada dilatación de asas de intestino delgado. El paciente fue tratado con piperacilina-tazobactam y amikacina sin obtener mejoría. Se realizó fibrobroncoscopia, en la que se observó una secreción fluida verdosa, con larvas filariformes de *Strongyloides stercoralis* en la citología del broncoaspirado (fig. 1B). Ante el diagnóstico de infestación pulmonar se añadió albendazol e ivermectina. No obstante, se produjo un empeoramiento progresivo, y el paciente falleció a los 26 días.

Las larvas filariformes de *Strongyloides stercoralis* penetran por la piel, acceden por el sistema venoso a cavidades derechas cardíacas, y de estas a los pulmones. A través de la glotis pasan al aparato digestivo donde depositan huevos y liberan larvas rhabditiformes no infectantes<sup>5</sup>. Estas pueden transformarse en filariformes invasoras durante los ciclos de autoinfección penetrando la mucosa intestinal para completar el ciclo<sup>5</sup>, produciendo ulceraciones que favorecen bacteriemias. En la infestación pulmonar, las larvas infiltran los espacios alveolares y vasculares con evolución a neumonitis intersticial difusa hemorrágica, distrés respiratorio del adulto o neumonía lobar como en el caso presentado<sup>2,3</sup>.

Nuestro paciente trabajaba descalzo en el campo, lo que explicaría la puerta de entrada, mientras que diferentes factores pudieron precipitar la infestación: gastrectomía con la consiguiente aclorhidria, ausencia de bazo, desnutrición y tratamiento con corticosteroides<sup>1-4</sup>. Cabe destacar que la parasitosis por *Strongyloides stercoralis* no es únicamente exótica, sino que es endémica

en la costa mediterránea<sup>2</sup>, con la prevalencia más alta en agricultores de ciertas comarcas. Sería razonable la detección de larvas en situaciones de riesgo, sobre todo antes de iniciar terapias inmunosupresoras, para prevenir la diseminación y la mortalidad por esta enfermedad<sup>1,3,4</sup>.

### Agradecimientos

Al Servicio de Anatomía Patológica del Hospital Clínico Universitario de Valencia, por su disposición y colaboración.

### Bibliografía

1. Mejía R, Nutman TB. Screening, prevention, and treatment for hyperinfection syndrome and disseminated infections caused by *Strongyloides stercoralis*. *Curr Opin Infect Dis*. 2012;25:458-63.
2. Igual R, Domínguez V. Strongiloidiasis: epidemiología, manifestaciones clínicas y diagnóstico. Experiencia en una zona endémica: la comarca de La Safor (Valencia). *Enferm Infecc Microbiol Clin*. 2007;25:38-44.
3. Keiser PB, Nutman TB. *Strongyloides stercoralis* in the immunocompromised population. *Clin Microbiol Rev*. 2004;17:208-17.
4. Llagunes J, Mateo E, Peña JJ, Carmona P, de Andrés J. Hiperinfección por *Strongyloides stercoralis*. *Med Intensiva*. 2010;34:353-6.
5. Murray PR, Rosenthal KS, Pfaffer MA. Nematodes. En: Murray PR, et al. *Medical Microbiology*. 6.ª ed. Philadelphia: Elsevier Mosby; 2009. p. 853-870.

Violeta Esteban Ronda\*, José Franco Serrano y María Luisa Briones Urriaga

Servicio de Neumología, Hospital Clínico Universitario, Valencia, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [violeta.er@hotmail.com](mailto:violeta.er@hotmail.com) (V. Esteban Ronda).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2016.01.010>

## Broncoaspiración de cuerpo extraño odontológico. A propósito de tres casos



### Three cases of odontological foreign body bronchoaspiration

Sr. Director:

Hemos leído con interés el artículo recientemente publicado por Gómez López et al.<sup>1</sup>, en el que se presentaba un caso de broncoaspiración de cuerpo extraño metálico odontológico, haciendo hincapié en la rareza del material aspirado, pues solo se han publicado 2 casos, uno de ellos el de los citados autores.

En nuestro centro hemos tenido la oportunidad de extraer a 3 pacientes, sendos cuerpos extraños de la misma naturaleza al referido. El primero de ellos, el 14-marzo-2007, en un varón de 71 años, tras localizar el cuerpo extraño, se extrajo en quirófano bajo anestesia general con una cestilla e intubación rígida. El 9-julio-2009, a una mujer de 63 años se le extrajo, en la sala de broncoscopias con solo anestesia tópica y con fórceps flexible de 2,2 mm. El tercer paciente, el 10-junio-2014, una mujer de 75 años, a la que intentamos extraer el material en la sala con broncoscopia flexible y sedación con midazolam sin éxito, lo que nos obligó al día siguiente a hacerlo con traqueoscopia rígido bajo anestesia general en quirófano, y con unas pinzas rígidas de las que utilizamos para retirar las prótesis de silicona.

En todos los casos, los pacientes estaban siendo sometidos a cirugía dental de implantación osteointegrada en el momento de la aspiración del cuerpo extraño. Se alojaron en el árbol bronquial derecho (bronquio de la pirámide basal y en intermediario), por efecto de la gravedad su parte más gruesa quedó en posición distal, ofreciendo la punta hacia arriba, lo cual facilita la extracción por parte del endoscopista, como ya apuntan Leuzzi et al.<sup>2</sup>. El material broncoaspirado al que estamos haciendo referencia<sup>3</sup> es una punta de llave manual de *torque* (par de torsión), fabricada en acero quirúrgico, de 20 mm de longitud (existen diversas longitudes comercializadas) y punta hexagonal de 1,31 mm. Sirve para ser acoplada a la llave de *torque* y atornillar la prótesis implantosoportada de titanio, fase clave de dicha cirugía. Como elementos de seguridad, estas puntas presentan en su parte superior una corona giratoria que permite enroscar el tornillo, y que posee un pequeño orificio, como podemos apreciar en la imagen, para introducir un hilo dental que impediría su caída y broncoaspiración (fig. 1).

Después de nuestra experiencia, podemos hacer algunas consideraciones. En nuestros 3 casos, el método de extracción fue muy distinto entre sí, y el procedimiento dependió fundamentalmente del grado de colaboración del paciente, pudiéndose utilizar indistintamente la broncoscopia flexible o la rígida. Abogamos por el empleo de la primera como técnica de inicio, por ser mucho más accesible en nuestro medio hospitalario. No obstante, cualquier dificultad durante esta puede ser fácilmente solventada con el empleo de la rígida. Se nos requirieron 2 de las piezas

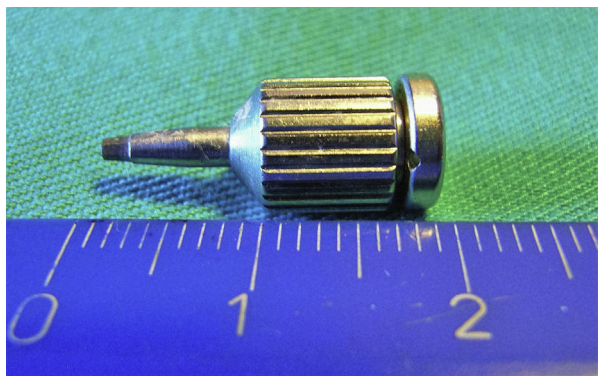


Figura 1. Punta de llave manual de torque.

extraídas para ser aportadas como prueba en la correspondiente demanda judicial. Por ello, insistimos en la prevención de estos accidentes por su frecuencia, gravedad potencial e implicaciones médico-legales.

### Hallazgo de la mutación fundadora C.3344C>t(p.Pro1115Leu) en el gen *EIF2KA4* en pacientes ibéricos de etnia gitana con enfermedad veno-oclusiva pulmonar: una llamada de atención a nuestra práctica diaria



#### Founder mutation C.3344C>t(p.Pro1115Leu) in the *EIF2KA4* gene in Iberian romani patients with pulmonary veno-occlusive disease: A warning for our daily practice

Sr. Director:

La enfermedad veno-oclusiva pulmonar (EVOP) es una forma poco común de hipertensión arterial pulmonar, cuya incidencia es desconocida, en parte debido a su infradiagnóstico y clasificación errónea como hipertensión arterial pulmonar idiopática (HAPI).

Se distingue por una disminución marcada de la capacidad de difusión de monóxido de carbono (DLCO) y un patrón radiológico típico, afecta con mayor frecuencia al sexo masculino y presenta un curso más agresivo que la HAPI<sup>1</sup>. Se han descrito múltiples causas relacionadas con su desarrollo, entre las que se encuentran alteraciones genéticas, habiéndose descrito recientemente la mutación en homocigosis o heterocigosis compuesta del gen *EIF2KA4* como causa de la EVOP, que parece estar presente en el 25% de las formas esporádicas y en el 100% de las familiares, mostrando un patrón de herencia autosómica recesiva y elevada penetrancia<sup>1</sup>.

Nuestro grupo ha descrito una mutación fundadora en *EIF2KA4* C.3344C>T(p.Pro1115Leu) en homocigosis en 18 pacientes de etnia gitana pertenecientes a 10 familias con elevada consanguinidad y varios miembros afectados (tabla)<sup>2</sup>.

Todos los pacientes desarrollaron la enfermedad en la edad adulta joven (media: 27,43 ± 7,3 años), presentando la mayoría de ellos formas rápidamente progresivas, con un desenlace fatal (*exitus* o trasplante bipulmonar) en el primer año tras el diagnóstico.

Si bien el perfil clínico al diagnóstico fue variable, todos los pacientes presentaban un rasgo común: una DLCO severamente disminuida.

Cabe destacar, que el estudio de familiares reveló un número elevado de *exitus* en parientes sin estudio genético, pero con historia sugestiva de EVOP. Además, hemos encontrado un número alarmante de familiares (59,7%) portadores en heterocigosis de la

### Bibliografía

- Gómez López A, García Lujan R, de Miguel Poch E. Broncoaspiración de cuerpos extraños. Caso clínico y revisión. Arch Bronconeumol. 2015;51:357-68.
- Leuzzi G, Kawamukai K, Lacava N. An unusual foreign body after dental filling. Lung. 2013;191:677-8.
- Martínez-González JM, Cano Sánchez J, Campo Trapero J, Martínez González MJS, García-Sabán F. Diseño de los implantes dentales: estado actual. Av Periodon Implantol. 2002;14:129-36.

Francisco M. Páez Codeso\*, Antonio Dorado Galindo y Gracia Eugenia González Angulo

Servicio de Neumología, Hospital Regional Carlos Haya, Málaga, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [broncoscopia.hch.sspa@juntadeandalucia.es](mailto:broncoscopia.hch.sspa@juntadeandalucia.es) (F.M. Páez Codeso).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2016.01.001>

mutación con el consiguiente riesgo de aparición de nuevos casos de homocigotos en las generaciones futuras (tabla 1).

A día de hoy la población gitana en España se estima cercana a 750.000 individuos distribuidos por todo el territorio<sup>3,4</sup>, caracterizándose por una elevada tasa de consanguinidad. Dado que la mutación descrita parece hasta la fecha propia de esta etnia y la severidad de la enfermedad, se trata de un problema socio-sanitario potencialmente grave propio de esta población, que podría ser prevenido parcialmente mediante la realización de un diagnóstico genético precoz y un adecuado consejo genético dirigidos a reducir el número de nuevos casos afectados.

Por tanto, en nuestro país, creemos imprescindible mantener un elevado nivel de sospecha, y recordar que ante un paciente de etnia gitana en estudio por disnea con historia familiar de HAP y DLCO severamente disminuida, se debe excluir el diagnóstico de la EVOP, y es necesario realizar el estudio genético de *EIF2KA4*, estando contraindicada la biopsia pulmonar. El hallazgo de mutaciones en homocigosis en *EIF2KA4* deberá implicar la derivación precoz del paciente a un centro con programa de trasplante pulmonar, y contraindicará el uso de vasodilatadores pulmonares, por el elevado riesgo de desencadenar un cuadro severo de edema pulmonar. Además, deberemos llevar a cabo un cribado de familiares de pacientes portadores de la mutación, y un adecuado consejo gené-

Tabla 1

Resumen de familias estudiadas

Familia	N.º de casos índice	N.º de familiares estudiados	N.º de familiares heterocigotos sanos	N.º de familiares homocigotos sin EVOP
Familia 1	3	12	7	0
Familia 2	1	0	0	0
Familia 3	4	13	8	1
Familia 4	1	1	1	0
Familia 5	1	0	0	0
Familia 6	3	28	21	1
Familia 7	1	1	0	0
Familia 8	0	8	3	0
Familia 9	2	5	1	0
Familia 10	2	1	0	0
Total	18	67	40	2

EVOP: enfermedad veno-oclusiva pulmonar.