

Neumotórax bilateral secundario a un síndrome de fuga aérea 22 años después de un trasplante alogénico de médula ósea



Bilateral pneumothorax secondary to air leak syndrome 22 years after allogeneic bone marrow transplantation

Sr. Director:

El síndrome de fuga aérea (SFA) es una grave e infrecuente complicación no infecciosa del trasplante alogénico de médula ósea (TAMO) que afecta generalmente a pacientes con bronquiolitis constrictiva (BC) en el contexto de una enfermedad injerto contra huésped (EICH), y su pronóstico es muy pobre¹⁻³. El diagnóstico del SFA suele ser radiológico y puede presentarse en forma de neumotórax, neumomediastino, enfisema intersticial y/o subcutáneo^{4,5}. Presentamos el caso de un SFA tardío 22 años después de un TAMO en un paciente con antecedentes de leucemia aguda linfoblástica.

Se trata de un varón de 32 años que consultó en nuestro hospital por disnea de mínimos esfuerzos y dolor torácico. Entre sus antecedentes destacaba una leucemia linfoblástica aguda diagnosticada a los 6 años de edad y tratada con quimioterapia y radioterapia craneal profiláctica. Cuatro años después, a los 10 años de edad, sufrió una recaída testicular de su leucemia, sometiéndose a un TAMO tras un acondicionamiento con quimioterapia e irradiación corporal total. El paciente desarrolló varias complicaciones no infecciosas relacionadas con los tratamientos recibidos: hipogonadismo primario, cataratas bilaterales, déficit de hormona del crecimiento, síndrome de secreción inadecuada de hormona antidiurética, etc. Asimismo, a los 28 años de edad (18 años después del TAMO) al paciente se le diagnosticó una BC en el contexto de una EICH crónica grado I. Esta forma leve de EICH, que también presentaba manifestaciones cutáneas e intestinales se trató con dosis bajas de corticoides en un intento de minimizar el desarrollo de infecciones oportunistas, pero también porque las formas no severas de EICH tienen un efecto «injerto contra tumor» que reduce las posibilidades de recidiva tumoral. No obstante, las pruebas funcionales respiratorias del paciente fueron deteriorándose progresivamente a pesar de una escalada en la dosis de corticoides. Además el paciente presentó un primer episodio de neumotórax izquierdo (4 meses antes de ingresar en nuestro hospital) que fue tratado exitosamente con un tubo de drenaje en otro centro. En el momento del ingreso en nuestro centro el paciente presentaba una capacidad vital forzada de 1.230 ml (27,2% del valor teórico de referencia) y un volumen espiratorio forzado de 1.060 ml (27,7% del valor teórico de referencia). En una radiografía de tórax se identificó una pérdida de

volumen de ambos pulmones y un nuevo neumotórax izquierdo (fig. 1A). En una TC de tórax se observaron signos de una BC con áreas de atrapamiento aéreo (fig. 1B) y un neumotórax bilateral (fig. 1C), emitiéndose el diagnóstico de SFA. A pesar de la colocación de un tubo de drenaje torácico izquierdo, el paciente falleció 5 semanas más tarde por una insuficiencia respiratoria.

El SFA es una grave complicación no infecciosa del TAMO consistente en la presencia de gas extraalveolar en el tórax en forma de neumotórax, enfisema intersticial, neumomediastino y/o enfisema subcutáneo¹. Se trata de una complicación muy poco frecuente, y la práctica totalidad de casos de SFA se asocian a cuadros avanzados de BC en el contexto de una EICH crónica². No obstante, a diferencia de la presentación clínica generalmente larvada (disnea progresiva, taquipnea, tos) de la BC, el SFA puede manifestarse clínicamente de manera más aguda en forma de dolor torácico o disnea súbita. Además, el diagnóstico de SFA conlleva un pronóstico vital muy pobre a largo plazo, por lo que su detección radiológica tiene importantes implicaciones terapéuticas y pronósticas³. La mayor parte de los casos de SFA suele diagnosticarse desde pocos meses después del TAMO hasta 6-7 años después del mismo, y en general son las pruebas de imagen (especialmente la TC de tórax) las que confirman la sospecha clínica de SFA. A pesar de que la TC de tórax se ha convertido en una herramienta diagnóstica de gran utilidad en el diagnóstico y el seguimiento de las complicaciones relacionadas con el TAMO, existen muy pocas referencias bibliográficas que describan los hallazgos radiológicos del SFA⁴. Nuestro caso resulta interesante porque no hemos encontrado en la literatura científica un caso tan tardío de SFA tras un TAMO y porque solo se han descrito 3 casos previos de SFA con neumotórax bilateral⁵. Además, creemos que en pacientes sometidos a TAMO con diagnóstico (o sospecha clínica) de BC que presentan síntomas torácicos agudos (dolor torácico y/o disnea súbita) debe realizarse una TC de tórax para descartar las diferentes manifestaciones radiológicas del SFA.

Bibliografía

1. Yamano A, Nagasaki A, Nakachi S, Kinjo S, Takasu N. Air-leak syndrome associated with bronchiolitis obliterans after allogeneic peripheral blood stem cell transplantation. *Int J Hematol.* 2007;85:95-6.
2. García-Reina S, Gómez-Caro A, Sánchez-Lorente D. Air leak syndrome due to graft versus host disease. *Arch Bronconeumol.* 2009;45:358-9.
3. Moon MH, Sa YJ, Cho KD, Jo KH, Lee SH, Sim SB. Thoracic air-leak syndromes in hematopoietic stem cell transplant recipients with graft-versus-host disease: A possible sign for poor response to treatment and prognosis. *J Korean Med Sci.* 2010;25:658-62.
4. Franquet T, Rodríguez S, Hernández JM, Martino R, Giménez A, Hidalgo A, et al. Air-leak syndromes in hematopoietic stem cell transplant recipients with chronic GVHD: High-resolution CT findings. *J Thorac Imaging.* 2007;22:335-40.

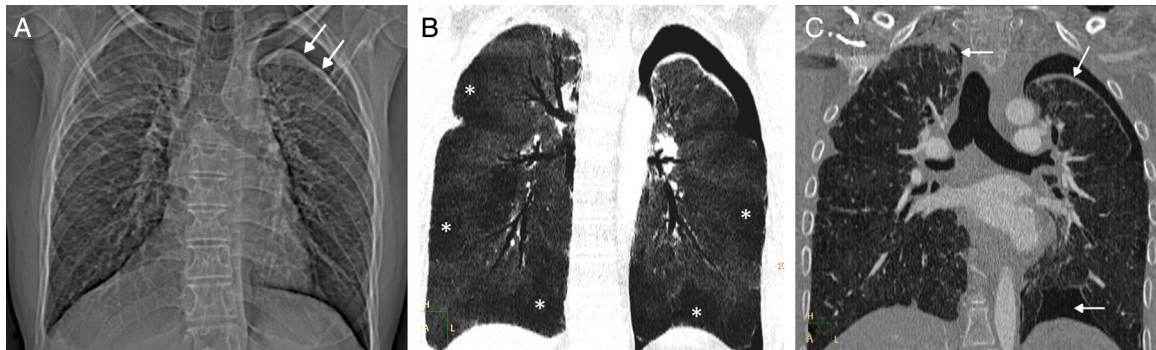


Figura 1. A) Radiografía de tórax en la que se observa una pérdida de volumen de ambos pulmones y un neumotórax izquierdo (flechas). B) Reconstrucción coronal proyección de mínima intensidad (minIP) de la TC de tórax (ventana de parénquima pulmonar) que muestra áreas geográficas de baja atenuación en ambos pulmones (asteriscos) en relación con zonas de atrapamiento aéreo. C) Imagen coronal de la TC de tórax (ventana de parénquima pulmonar) en la que se identifica un neumotórax bilateral (flechas).

5. Sakai R, Kanamori H, Nakaseko C, Yoshida F, Fujimaki K, Sakura T, et al. Air-leak syndrome following allo-SCT in adult patients: Report from the Kanto Study Group for Cell Therapy in Japan. *Bone Marrow Transplant*. 2011;46:379-84.

Luis Gorospe^{a,*}, Alberto Cabañero-Sánchez^b,
Gemma María Muñoz-Molina^b y Anabelle China-Rodríguez^c

^a Servicio de Radiodiagnóstico, Hospital Universitario Ramón y Cajal, Madrid, España

^b Servicio de Cirugía Torácica, Hospital Universitario Ramón y Cajal, Madrid, España

^c Servicio de Hematología, Hospital Universitario Ramón y Cajal, Madrid, España

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: luisgorospe@yahoo.com (L. Gorospe).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2016.12.004>
0300-2896/

© 2017 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Prevalencia de asma en la infancia y adolescencia en una zona geográfica de características rurales



Prevalence of Asthma in Children and Adolescents in a Rural Area

Sr. Director:

El asma, entendida como (tos, disnea y sibilancias) es la enfermedad crónica más prevalente en la infancia¹. En el mundo, se estima que hay unos 300 millones de personas afectadas por esta enfermedad². Además produce un enorme gasto sanitario, pérdida en la productividad del trabajo en el adulto y una gran alteración familiar en el caso del asma infantil³.

El asma es una enfermedad infradiagnosticada e infratratada por lo que los cuestionarios estandarizados que utilizan como marcadores de la enfermedad la existencia de síntomas compatibles con asma, han resultado la herramienta de elección para la identificación del asma en estudios descriptivos^{4,5}. El cuestionario ISAAC ha sido utilizado para conocer la prevalencia de asma en todos ellos aportando datos en diversos estudios. A partir de estos estudios se sabe que la prevalencia del asma asciende a un 11,7% en niños y a un 14,1% en adolescentes⁵.

En Navarra según un estudio realizado en 2015⁶ se observó una prevalencia de asma del 10,1% en los niños y del 10,6% en los adolescentes. En cambio, los niños presentaron una prevalencia de «sibilancias alguna vez» mayor que los adolescentes (22,7 y 12,9%, respectivamente). Este estudio se realizó en el área metropolitana de Pamplona, siendo una zona urbana con localidades con un mínimo de 10.000 habitantes. En Navarra no se han realizado estudios en el área rural sobre asma infantil previamente. En Galicia, se realizó un estudio en el año 2010 en la población rural infantil y adolescente obteniéndose los siguientes resultados⁷. La prevalencia de asma en la infancia y en la adolescencia fue de 6,3 y 15,3%, respectivamente.

En el grupo de 6-7 años un 38% tuvo sibilancias alguna vez y un 13,2% sibilancias recientes. Un 21,9% tuvo tos nocturna reciente y un 6,3% sibilancias con el ejercicio recientes. En el grupo de 13-14 años un 20,1% tuvo sibilancias alguna vez y un 11% sibilancias recientes. Teniendo en cuenta los datos reflejados anteriormente este estudio pretende conocer la prevalencia síntomas compatibles con asma en zonas con características rurales de Navarra, aportando datos novedosos al estudio ISAAC.

Para la realización del estudio se utilizó la versión validada del cuestionario del estudio ISAAC en euskera y en castellano según el modelo lingüístico del mismo a través de la realización del mismo en los centros educativos (Anexo I). Se seleccionaron los escolares de 6-7 años y 13-14 años pertenecientes a los centros escolares de las 7 Zonas Básicas de Salud (ZBS) de parte de la población rural de Navarra. Dentro de las diversas zonas básicas rurales de Navarra,

se seleccionaron 7 ZBS de la zona media de Navarra por incluir 2 poblaciones de unos 10.000 habitantes (Tafalla y Estella) y por proximidad al lugar de origen de los investigadores (hay que tener en cuenta que la dispersión entre los 15 pueblos es grande y en ocasiones hubo que desplazarse en varias ocasiones al centro educativo).

En primer lugar, se identificaron las localidades de las ZBS que tuvieran centros educativos. Cabe destacar que se encuentran municipios de tan solo 34 habitantes, por lo que muchos de estos centros educativos son comarcales. En total participaron 19 centros educativos de 15 localidades, aunque hay escolares de 45 municipios diferentes.

Cabe recordar que en España la escolarización es obligatoria desde los 6 hasta los 16 años. Por lo tanto, a través de los centros educativos estamos llegando al 100% de la población a estudiar.

Para poder repartir los cuestionarios en los 2 grupos de edad, se envió un correo electrónico informativo en el que se detallaba el estudio y se solicitaba una reunión con el director del centro. De esta manera cada centro decidía voluntariamente su participación en el estudio. A su vez cada director del centro consultó al consejo escolar y a las asociaciones de padres y madres sobre su participación en el estudio. Además, los padres y madres rellenaban una hoja de autorización para la realización del cuestionario por los escolares.

El trabajo de campo se desarrolló entre los meses de septiembre de 2014 a febrero de 2015.

Tras escanear cada cuestionario se introdujeron los datos en el programa estadístico SPSS[®], determinando la prevalencia de síntomas de asma según grupo de edad y sexo mediante los siguientes métodos estadísticos: intervalos de confianza (IC) 95%, prueba de Chi-cuadrado, análisis ajustados, *odds ratio* (OR) y regresión logística no condicionada.

En total se repartieron 969 cuestionarios: 607 (62,6%) del grupo de 6-7 años y 362 (37,4%) del grupo de 13-14 años. En el grupo de 6-7 años de los 607 cuestionarios a rellenar por los padres y madres, se rellenaron 449 de ellos (74%). En el grupo de 13-14 años: de los 362 cuestionarios repartidos se rellenaron 348 (96,1%). La población que finalmente se incluyó en el estudio está formada por un total de 797 escolares. Su distribución fue: según el grupo de edad: 449 (56,3%) de 6-7 años y 348 (43,7%) de 13-14 años y según el sexo: 414 (52%) varones y 383 (48%) mujeres.

Los datos descriptivos sobre prevalencia de síntomas de asma según grupo de edad y sexo aparecen en la [tabla 1](#).

En este estudio se dan a conocer por primera vez datos sobre prevalencia de síntomas compatibles con asma en la zona rural de Navarra, siendo el número de estudios escasos en otras zonas rurales España. El porcentaje de escolares que han padecido sibilancias alguna vez es significativamente mayor en los escolares de 6-7 años (18,3% en chicos y 16,2% en chicas) que en los de 13-14 años (6,7% en chicos y 7,3% en chicas). Así la frecuencia de sibilancias recientes, un 14,1% en primaria frente a un 10% en secundaria. Sin embargo un 13,4% de escolares de 13-14 años han padecido asma alguna vez frente a un 11,7% de 6-7 años. Como podemos observar la preva-