



CARTAS CIENTÍFICAS

Obstrucción de la vía aérea central por enfermedad inflamatoria intestinal y rescate terapéutico con membrana de oxigenación extracorpórea



Central airway obstruction due to inflammatory bowel disease and rescue with extracorporeal membrane oxygenation

Sr. Editor:

Presentamos el caso de una mujer de 15 años previamente sana que ingresa por fiebre, tos no productiva e insuficiencia respiratoria. Seis semanas antes había comenzado con un cuadro leve e intermitente de diarrea acuosa y en las 2 últimas semanas con fiebre y tos seca. En una consulta ambulatoria 10 días antes del ingreso la analítica mostraba: leucocitosis ($15.660/\text{mm}^3$), anemia (Hb 11 g/dL), ligera elevación de transaminasas (AST/ALT 62/75 UI/L) y elevación significativa de PCR (243 mg/dL). Se inició tratamiento con azitromicina y ambroxol, sin mejoría. Acudió en varias ocasiones a Urgencias por persistencia de la fiebre, la tos y disnea leve, destacando en la exploración la presencia de taquicardia sinusal, sibilancias e hipoxemia relativa, y en la radiografía de tórax, signos de hiperinsuflación. En su última visita a Urgencias presentaba mayor hipoxemia (SaO_2 87%), la radiografía de tórax mostraba neumomediastino y enfisema subcutáneo (fig. 1), y la analítica: leucocitosis ($23.590/\text{mm}^3$) con neutrofilia (78%), anemia (Hb 10 g/dL), trombocitosis ($643.000/\text{mm}^3$), elevación de PCR (180 mg/dL) y procalcitonina (21 ng/mL). Ingresó en planta de hospitalización con oxigenoterapia, bromuro de ipratropio y budesonida inhalados, metilprednisolona (20 mg/12 h) y levofloxacino. En pocas horas progresó a un cuadro de insuficiencia respiratoria muy grave que se hizo agónica, con ingurgitación yugular muy marcada, hipoxemia y acidemia respiratoria extremas (SaO_2 37% con mascarilla de alta FiO_2 y PaCO_2 144 mmHg con pH 6,9). Fue intubada sin dificultad, pero la ventilación mecánica resultó muy complicada como consecuencia de una extraordinaria resistencia en la vía aérea con hiperinsuflación, auto-PEEP e inestabilidad hemodinámica, que impedían alcanzar objetivos mínimos de oxigenación y ventilación a pesar de la utilización de

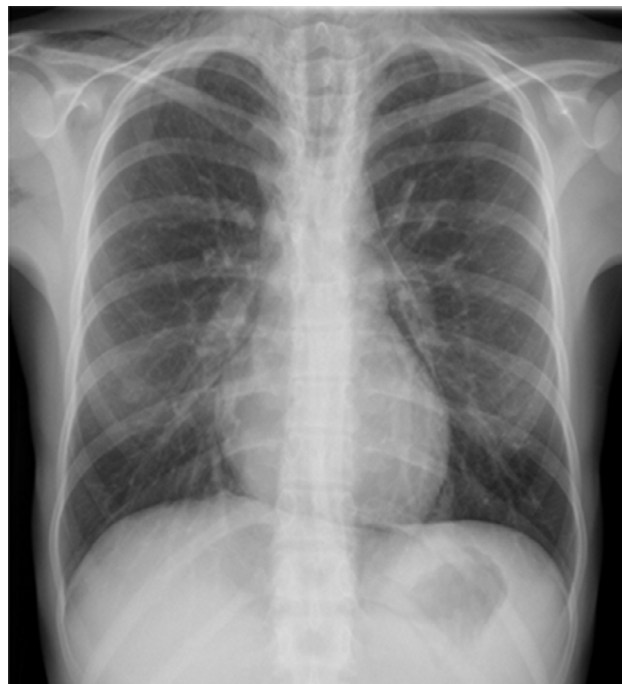


Figura 1 Radiografía de tórax al ingreso en la que se observan neumomediastino y enfisema subcutáneo en el cuello.

volúmenes corrientes muy bajos, tiempos espiratorios prolongados y tratamiento vasopresor con noradrenalina a dosis muy elevada. En la auscultación llamaba la atención la presencia de una sibilancia inspiratoria muy aguda en la región esternal. En este contexto, presentó 2 episodios consecutivos de parada cardíaca de 10 y 5 min con disociación electromecánica de los que se recuperó, en precario, con masaje cardíaco y adrenalina, continuando con hipoxemia, hipercapnia y acidemia muy graves ($\text{SatO}_2 < 50\%$, PaCO_2 por encima del rango superior del gasómetro y pH 6,7), e inestabilidad hemodinámica extrema con necesidad de soporte vasopresor a dosis muy elevadas. Con la sospecha de obstrucción de la vía aérea central (OVAC) se decidió la realización de fibrobroncoscopia bajo asistencia circulatoria y respiratoria con membrana de oxigenación extracorpórea (ECMO). El procedimiento se llevó a cabo en quirófano bajo anestesia general mediante canulación abierta femoro-femoral y asistencia venoarterial. La fibrobroncoscopia mostró una

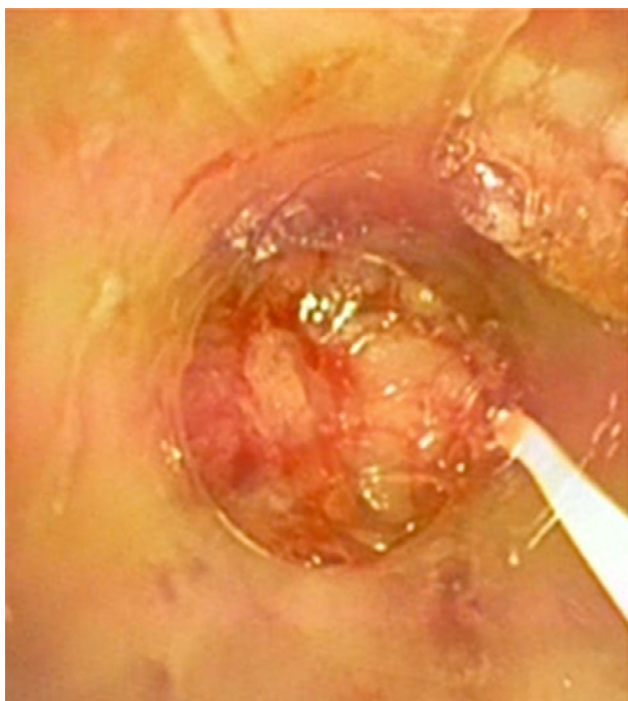


Figura 2 Vista de la luz traqueal distal por fibrobroncoscopia.

obstrucción casi completa de la luz traqueal por un material blanquecino de aspecto mamelonado que se biopsió, obteniendo un material fibrino-leucocitario y mucoso sin atipias (fig. 2). Mediante cauterización con sonda de argón-plasma se consiguió una luz traqueal suficiente que facilitó la ventilación y una mejoría del intercambio gaseoso y hemodinámica que permitió, en el propio quirófano, la desconexión de la ECMO. Con la sospecha de un proceso inflamatorio se inició tratamiento con pulso de metilprednisolona (0,5g iv) y se continuó la antibioticoterapia. Unas 12h después, ya en una situación hemodinámica y respiratoria relativamente estables, se realizó una TAC toracoabdominal que mostró un engrosamiento concéntrico de la tráquea y los bronquios principales, neumomediastino, hidroneumotórax izquierdo, enfisema subcutáneo toraco-abdominal y neumorretroperitoneo (fig. 3). Se drenó el hidroneumotórax izquierdo y posteriormente se realizó una broncoscopia rígida en la que ya se apreciaba una clara reducción del material inflamatorio y de la ocupación traqueobronquial. Aun así, contemplando la posibilidad de recurrencia, se decidió la implantación de una prótesis traqueobronquial en «Y». La evolución posterior resultó favorable, con una recuperación neurológica y cardiorrespiratoria *ad integrum* que permitió la retirada precoz (~24h) de la ventilación mecánica y finalmente el alta hospitalaria sin ningún tipo de secuela.

Todos los estudios microbiológicos, incluyendo bacterias, micobacterias, hongos, virus y el cultivo del material obtenido por biopsia, resultaron negativos. Con la sospecha de enfermedad inflamatoria intestinal (EII) se determinaron marcadores serológicos, resultando positivos ANCA-c y anticuerpos anti-*Saccharomyces cerevisiae*. Los estudios endoscópicos subsiguientes mostraron pancolitis e ileitis aftosa, compatible con enfermedad de Crohn, y las biopsias,

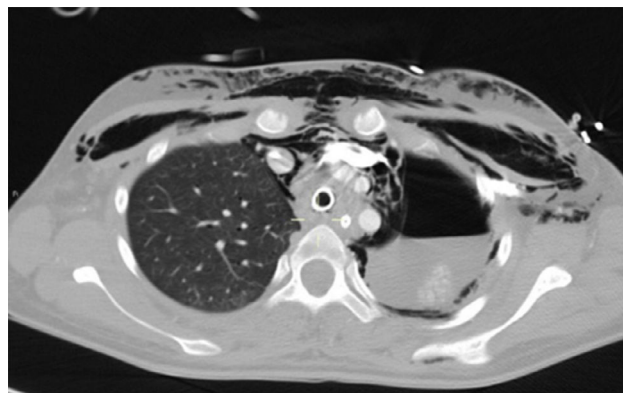


Figura 3 Imagen de TAC torácico. Se observan prótesis traqueal, hidroneumotórax izquierdo, neumomediastino y extenso enfisema subcutáneo.

«ileitis activa focal y colitis activa difusa, con distorsión arquitectural, irregularidad de la superficie y un infiltrado inflamatorio en la lámina propia de intensidad moderada constituido por linfocitos, células plasmáticas y algunos neutrófilos, con exocitosis neutrofílica, abscesos crípticos y plasmocitosis basal, sin observarse granulomas», todo ello compatible con EII. La paciente continuó tratamiento con esteroide y azatioprina, con un aceptable control de la enfermedad hasta la actualidad.

La OVAC es un cuadro muy infrecuente y su diagnóstico exige un alto índice de sospecha clínica que resulta difícil si no existen antecedentes patológicos¹. Suele presentarse con tos, insuficiencia respiratoria y sibilancias, pudiendo simular una crisis de asma o bronquitis aguda. La radiología simple puede mostrar datos de hiperinsuflación y en casos extremos, signos de barotrauma por atrapamiento. La TAC puede además mostrar estrechamiento circunferencial o nodular de la tráquea y los bronquios principales. En el diagnóstico también puede resultar útil la morfología del bucle flujo-volumen, que muestra obstrucción intratorácica fija en ambas fases del ciclo respiratorio². La broncoscopia es definitivamente el procedimiento diagnóstico y terapéutico de elección. En los casos más graves, la utilización de ECMO puede permitir el rescate terapéutico y en la literatura reciente se han comunicado casos aislados con una elevada supervivencia³. La elección del tipo de canulación y asistencia, venoarterial o venovenosa, depende de la situación clínica. La opción venoarterial permite soporte respiratorio y hemodinámico y es de elección en pacientes en shock o parada cardíaca, mientras que la venovenosa sería suficiente en situaciones de estabilidad hemodinámica, cuando solo existe dificultad para el intercambio gaseoso.

Las manifestaciones extraintestinales de la EII se han descrito en casi todos los órganos de la economía, siendo la afectación pulmonar la menos frecuente, con una prevalencia inferior al 0,5%^{4,5}. El mecanismo patogénico es desconocido, pero se piensa que es común al proceso inflamatorio que afecta al intestino⁶. Habitualmente ocurre años después del diagnóstico de la EII, cuando la enfermedad se encuentra en remisión o tras una colectomía, resultando excepcional el inicio con afectación pulmonar⁷ y anecdótica la afectación traqueobronquial, de manera que hasta la fecha solo se han comunicado 11 casos de OVAC⁸, ninguno tan grave. Los datos disponibles de los casos comunicados

muestran la eficacia del tratamiento esteroideo sistémico o inhalado⁸, siendo preciso ocasionalmente recurrir a técnicas broncoscópicas para mantener la permeabilidad de la vía aérea^{9,10}.

El caso que presentamos resulta insólito por la presentación clínica tan dramática, por lo excepcional que resulta que la OVAC sea el inicio de la EII, y por la oportunidad de aplicar ECMO, permitiendo el rescate terapéutico en un caso que en otras circunstancias habría tenido un final dramático. Es el primer caso comunicado de rescate con ECMO³ sin diagnóstico previo, con imposibilidad para la ventilación y shock obstructivo con parada cardíaca.

Bibliografía

1. Al-Qadi MO, Artenstein AW, Braman SS. The "forgotten zone": Acquired disorders of the trachea in adults. *Respir Med.* 2013;107:1301–13.
2. Miller RD, Hyatt RE. Obstructing lesions of the larynx and trachea: Clinical and physiologic characteristics. *Mayo Clinic Proc.* 1969;44:145–61.
3. Willms DC, Mendez R, Norman V, Chammans JH. Emergency bedside extracorporeal membrane oxygenation for rescue of acute tracheal obstruction. *Respir Care.* 2012;57:646–9.
4. Kraft SC, Earle RH, Roesler M, Esterly JR. Unexplained bronchopulmonary disease with inflammatory bowel disease. *Arch Intern Med.* 1976;136:454–9.
5. Vennera MC, Picado C. Manifestaciones pulmonares de las enfermedades inflamatorias intestinales. *Arch Bronconeumol.* 2005;41:93–8.
6. Higenbottam T, Cochrane GM, Clark TJ, Turner D, Millis R, Seymour W. Bronchial disease in ulcerative colitis. *Thorax.* 1980;35:581–5.
7. Papanikolaou I, Kagouridis K, Papiris SA. Patterns of airway involvement in inflammatory bowel diseases. *World J Gastrointest Pathophysiol.* 2014;5:560–9.
8. Park S, Park J, Kim H-K, Kim JY, Hur SC, Lee JH, et al. Tracheal involvement in Crohn disease: The first case in Korea. *Clin Endosc.* 2016;49:202–6.
9. Wilcox P, Miller R, Miller G, Heath J, Nelems B, Muller N, et al. Airway involvement in ulcerative colitis. *Chest.* 1987;92:18–22.
10. Plataki M, Tzortzaki E, Lambiri I, Giannakaki E, Ernst A, Siafakas NM. Severe airway stenosis associated with Crohn's disease: Case report. *BMC Pulm Med.* 2006;6:7.

M. Ramírez-Romero^{a,*}, B. Hernández-Alonso^a,
C. García-Polo^b, A.J. Abalde-Bechiarelli^c,
A. Garrino-Fernández^a y A. Gordillo-Brenes^a

^a Servicio de Medicina Intensiva, Hospital Universitario Puerta del Mar, Cádiz, España

^b Servicio de Neumología, Hospital Universitario Puerta del Mar, Cádiz, España

^c Servicio de Aparato Digestivo, Hospital Universitario Puerta del Mar, Cádiz, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico:

miguel.ramirez.romero.1979@gmail.com

(M. Ramírez-Romero).

<https://doi.org/10.1016/j.medin.2017.04.008>
0210-5691/

© 2017 Elsevier España, S.L.U. y SEMICYUC. Todos los derechos reservados.

Near fatal bronchospasm and bradycardia after carbetocin administration



Broncoespasmo y bradicardia grave posterior a la administración de carbetocina

Dear Editor,

Uterotonics are widely used as prophylactic and therapeutic drugs for uterine atony, the major cause of direct maternal mortality due to postpartum hemorrhage.^{1,2} Carbetocin [1-deamino-1-carba-2-tyrosine-(0-methyl)-oxytocin], a synthetic oxytocin analogue effective for treating and preventing post-partum hemorrhage, increases intracellular calcium, stimulates myosin phosphorylation and contraction in uterine smooth muscle cells; has an onset of action of 2 min and a plasma half-life six to seven times longer than oxytocin. It can be administered by intravenous (IV) and intramuscular route. Despite its safety profile, chest tightness, palpitations and breathing discomfort are frequently reported after its administration,^{3,4,5} therefore prescription information and some reviews recommend caution when it is administered to patients with asthma or cardiovascular

disease. Herein we report a case of near fatal bronchospasm and bradycardia after carbetocin administration.

A 22 years-old pregnant female, with a past history of a ruptured ectopic tubal pregnancy two years earlier and asthma diagnosed during the first trimester of her current pregnancy, was admitted with at 39-week pregnancy to the obstetric ward for an elective Cesarean-section, current medication were two puffs of dose metered inhaled albuterol on a per needed basis. Surgery was performed under regional anesthesia. Due to uterine hemorrhage after birth, a bolus of 100 mcg of intravenous carbetocine was administered by intravenous infusion over 60 s, 2 min later, she presented sudden onset of dyspnea, wheezing, disseminated rash, hypotension and severe bradycardia – irresponsive to 1 mg of intravenous atropine – that progressed to a complete cardiac arrest; four minutes of advanced cardiopulmonary resuscitation which included 1 mg epinephrine was needed to restore pulse. After tracheal intubation severe wheezing and hypotension persisted, a single dose of 1.5 mg/kg IV methylprednisolone and a norepinephrine drip were initiated. Bleeding stopped, so surgery was finished and the patient was transferred to the Intensive Care Unit (ICU).

She was admitted to the ICU on mechanical ventilation, pulmonary mechanics reported high intrathoracic pressures with an auto-PEEP of 12 cm H₂O and a peak inspiratory