

Galindo B
Gómez C
Herrero A
Orte C
Rodríguez I
De Miguel F

Servicio de Otorrinolaringología
del Hospital Universitario
Miguel Servet. Zaragoza.

Laringocele tras submaxilectomía. A propósito de un caso

Laryngocele after submaxillectomy. A case report.

RESUMEN

El laringocele es una hernia de la mucosa laríngea que nace en el extremo apendicular del ventrículo, dando lugar a una dilatación de contenido aéreo, por aumento de tamaño del sáculo ventricular. Se sitúa en el extremo anterior del ventrículo y en ocasiones se prolonga superiormente terminando a nivel del borde superior del cartílago tiroideos. Puede ser interno, externo o mixto, siendo este último el más frecuente. Contiene aire con una ligera sobrepresión, aunque si se obstruye la comunicación del laringocele con la luz laríngea puede dar lugar a variantes como el laringomucocele y laringopiocele, en función de si se encuentra moco o pus en su interior. Generalmente son unilaterales y asintomáticos, siendo diagnosticados a menudo por el incremento del uso de TAC. Su asociación con el cáncer laríngeo obliga a descartar la existencia de patología tumoral subyacente. Está tapizado por un epitelio de tipo respiratorio.

PALABRAS CLAVE:

Laringe, laringocele, submaxilectomía.

SUMMARY

A laryngocele is a hernia of the laryngeal mucous that originates in the appendicular extreme of the ventricle, and causes an air-filled dilatation originated by an abnormal increase in size of the ventricular sacculus. It is located in the anterior border of the ventricle and it is sometimes extended to the top of the upper edge of the thyroid cartilage. It can be internal, external or mixed, the latter being the most frequent. It contains air with a slight overpressure, although if the airpath from the laryngocele to the laryngeal lumen is obstructed, it can lead to laryngomucocele and laryngopiocele, depending on whether it is filled with mucus or pus. Most of them are unilateral and asymptomatic, and are often incidental findings due to the increased use of CT scan. Its relationship with laryngeal cancer has made it necessary to exclude an underlying neoplasia. It is covered with respiratory epithelium.

KEY WORDS:

Larynx, laryngocele, submaxillectomy.

Introducción

El laringocele es una malformación laríngea infrecuente, cuya incidencia es de 1 de cada 2-2,5 millones de habitantes/año^{1,2} y que consiste en una dilatación del sáculo del ventrículo laríngeo. Es más frecuente en personas adultas mayores de 50 años, y en cuanto al sexo, existe un claro predominio masculino (7:1)³.

Aunque posee etiología incierta, se considera la existencia de congénitos y adquiridos. En el primero de los casos, se debería a la presencia de restos embriológicos, como el apéndice de Morgagni, que pudieran facilitar la producción del laringocele, mientras que en los adquiridos la causa más importante sería por aumentos mantenidos de la presión transglótica, siendo descritos clásicamente en instrumentistas de viento y sopladores de vidrio. En ciertos casos, esta dilatación sacular se produce como consecuencia de la infiltración tumoral de tejidos, que producirían efecto valvular en el ventrículo, causando el acúmulo de aire. Como veremos en nuestro caso, la cirugía previa podría ser otra causa de laringocele adquirido por iatrogenia.

Según su relación con la membrana tirohioidea se clasifican en:

Internos: localizados dentro de la membrana, están limitados a región paraglótica de la banda y el repliegue aritenoepiglótico.

Externos (10-15%)⁴: sobrepasan cartílago tiroideos, llegando a valécula, senos piriformes y se extienden superiormente a la membrana tirohioidea. Son visibles por delante del músculo esternocleidomastoideo.

Mixtos (50-70%)⁴: poseen aspecto bilobulado o en reloj de arena. Comienzan siendo internos, y crecen hasta salir por la parte más débil de la membrana tirohioidea, constituida por el pedículo vasculonervioso laríngeo superior.

Es una patología generalmente benigna, frecuentemente asintomática, por lo que el diagnóstico suele ser más radiológico que clínico. La clínica varía en función de su localización: en los externos se observa masa cervical medial al ECM, que aumenta de tamaño con maniobra de Valsalva. Es característico de los externos el signo de Bryce, en los que por compresión externa, se escucha un sonido sibilante por entrada de aire en la laringe. Es patognomónico pero no se recomienda por el riesgo de rotura que existe. En los internos predomina la sensación de cuerpo extraño, tos, disfagia, disfonía, odinofagia o estridor. En los mixtos, podemos ver la combinación de ambos. El contenido generalmente es aire, pero podría acumularse moco

(laringomucocele, en un 28%) en cuyo caso se influiría menos por la maniobra de Valsalva, o incluso pus (laringopiocele, en un 6-17%)⁵, pudiendo llegar a producir clínica sistémica. Aunque en un considerable porcentaje pueden ser bilaterales, los más frecuente es que sean unilaterales y de tipo mixto. A pesar de que la bilateralidad es más frecuente en los internos, en los mixtos su frecuencia es del 10 al 20%⁶.

El diagnóstico de sospecha se realiza mediante la exploración con fibroscopia, observando agrandamiento de dilatación cuando se realiza la maniobra de Valsalva. El TAC se considera de elección para confirmar el diagnóstico, mostrando la presencia de una masa quística rellena de aire o de líquido. La RMN también puede ser útil, aunque no resulta imprescindible.

Ante el diagnóstico de un laringocele, siempre debe plantearse el diagnóstico diferencial con otras patologías como pueden ser los divertículos faríngeos, traqueocele, pseudolaringocele (sífilis, tuberculosis); en el caso del laringopiocele o laringomucocele debe realizarse con adenopatía, lipoma, quiste tirogloso, higroma quístico y paraganglioma⁷. En el caso de los niños, debe distinguirse de los quistes branquiales: únicamente la demostración de una conexión entre la lesión con el ventrículo laríngeo, o su ausencia, podrá distinguir entre estas dos entidades⁸. También se conoce que en un número elevado de ocasiones (entre un 2 y un 30% según series)³ está asociado a cáncer laríngeo, más frecuentemente con supraglótico⁹, siendo obligatorio descartar en todos los casos la patología neoplásica. Aunque con menor frecuencia, hay algún caso descrito en relación con amiloidosis^{10,11}.

En cuanto al tratamiento, no siempre es quirúrgico. Con los laringoceles pequeños y asintomáticos basta con un control periódico una vez descartada la presencia de una neoplasia. Los laringoceles internos en pocas ocasiones producen sintomatología que requiera tratar, pudiendo ser resueltos por marsupialización a través de una laringoscopia directa si fuera necesario. Los externos deben extirparse por cervicotomía lateral, disecándolos y ligando su pedículo lo más próximo posible del apéndice ventricular. En el caso de que fuera un laringopiocele, previamente a la cirugía es necesaria la antibioterapia. En general, no acostumbran a recidivar.

Caso Clínico

Mujer de 47 años, fumadora de un paquete al día, con antecedentes de submaxilectomía izquierda por submaxilitis crónica, acude a los 2 meses de la intervención con aparición de tumoración laterocervical izquierda submandibular próxima a cicatriz de dos semanas de evolución, no dolorosa, y voz ligeramente engolada, sin otra sintomatología asociada. La paciente refería que en el postoperatorio tuvo que realizar esfuerzo importante, creyendo ser este el origen del inicio de su clínica.

En la exploración con rinofibrolaringoscopia (Fig. 1A), se observaba una masa de aspecto quístico, con mucosa normal en el tercio anterior de banda izquierda con engrosamiento de cara laríngea lado izquierdo y zona de los tres repliegues, sin compromiso glótico ni alteraciones

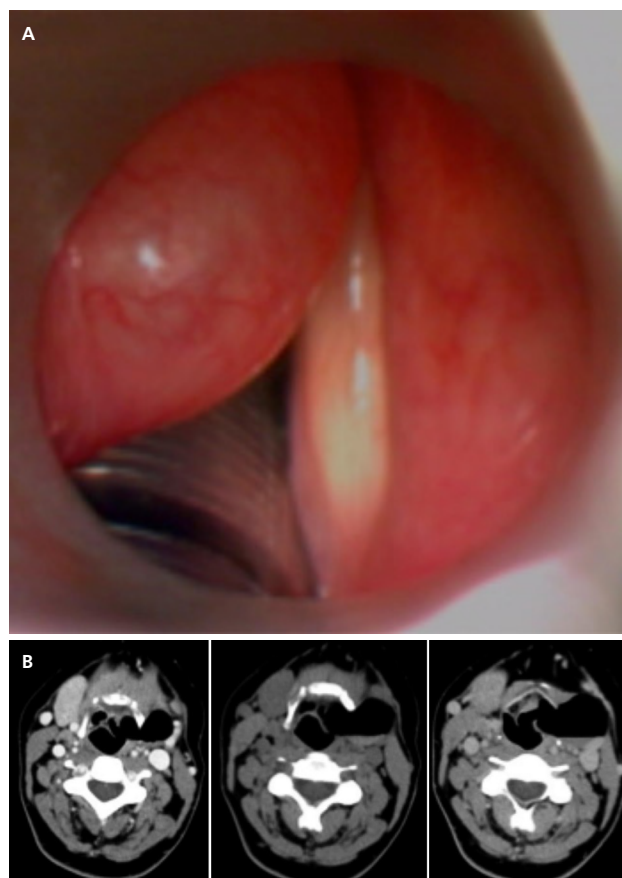


Figura 1: A. Imagen en laringoscopia directa: protrusión de banda izquierda, con imagen de lesión quística benigna. B. TAC. Imagen quística aérea bien delimitada que ocupa el espacio paralaríngeo derecho que sale entre el asta mayor del hioides y el borde superior del tiroides, hasta el tejido celular subcutáneo.

de la movilidad. En la palpación cervical se objetivó una tumefacción blanda laterocervical izquierda de aproximadamente 3 cm de diámetro que aumentaba de tamaño con la maniobra de Valsalva.

En el TAC (Fig. 1B) se identificaba a nivel de seno piriforme izquierdo una imagen quística bien delimitada de 39x15x19 mm. que se extiende hasta celda submaxilar, sugestiva de laringocele mixto.

La estrategia quirúrgica que nos planteamos fue un abordaje mixto: endoscópico y externo, aunque bien es cierto que la endoscopia sólo fue un complemento para la cirugía externa. Primero, utilizamos la laringoscopia directa en el sáculo del laringocele como guía de la ubicación del mismo. Posteriormente, se realizó una cervicotomía horizontal lateral en el hemicuello izquierdo (Fig. 2A). Tras ello, una disección por planos a través del músculo platismo y la fascia hasta llegar a la membrana tirohioidea, objetivando el pedículo del laringocele y suturándose a nivel de la base del mismo.

En el control postoperatorio la paciente refería ciertas molestias faríngeas propias de la intervención, presentando una laringe normal (Fig. 2B). El resultado de la anatomía patológica fue de quiste revestido por epitelio cilíndrico respiratorio.

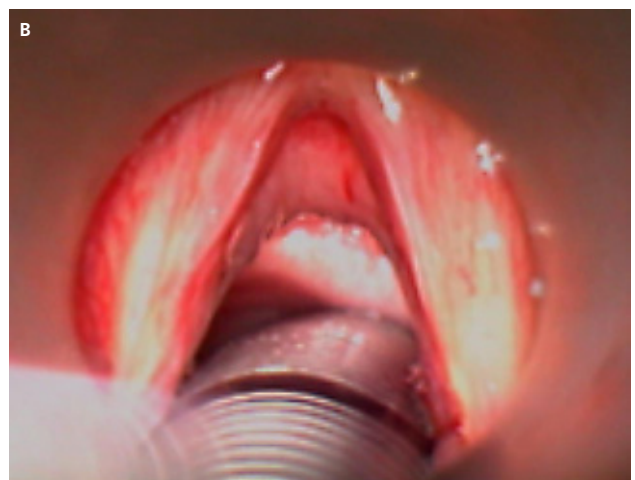
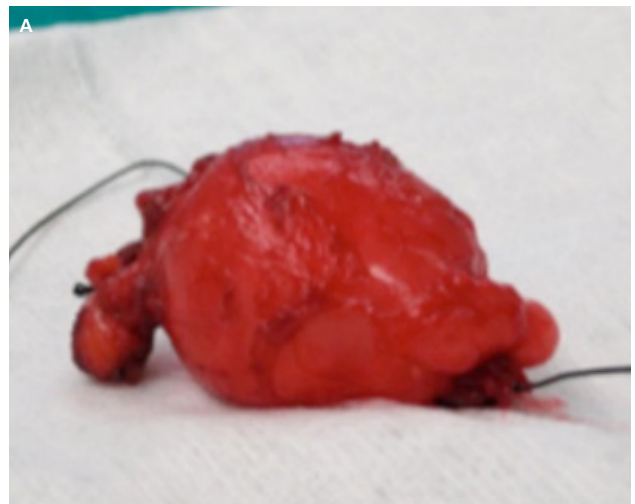
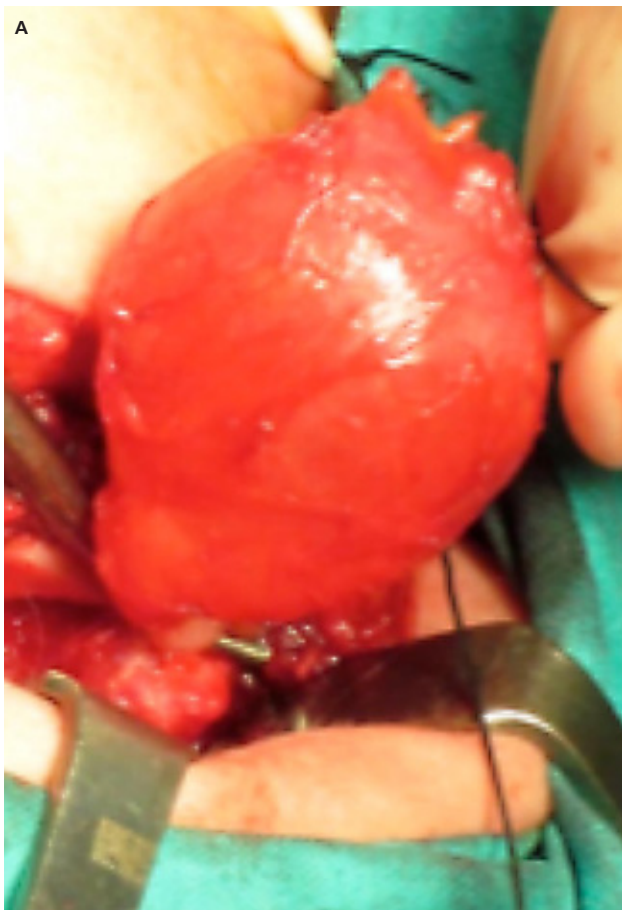


Figura 2: A. Imágenes de la disección por planos para acceder al laringocele y exéresis del mismo. B. Imagen laringoscópica tras exéresis del laringocele. Banda ya no está protruida, aspecto simétrico a la contralateral.

Discusión

A pesar de que la primera descripción del laringocele la realizó Larrey en 1829, no fue hasta 1867 que Virchow lo definió y categorizó, estableciendo como criterio de diagnóstico que el sáculo ventricular superara el límite superior del ala del cartílago tiroideos¹². Hollinger, De Santo y col., para evitar la imprecisión de su diagnóstico, establecen un criterio diagnóstico: sáculo ventricular agrandado, palpación de una tumoración laterocervical, obturación de una tumoración laríngea y sáculo lleno de aire en el estudio radiológico laríngeo¹³.

Los laringoceles son más frecuentes en varones, y en adultos entre 60-70 años. El 80% de ellos son unilaterales y preferentemente mixtos (50%), sin diferencias entre lado derecho e izquierdo. Casi el 90% se dan en caucasianos⁸.

Los objetivos del tratamiento serían: delimitar la extensión y naturaleza de la lesión, tratarla para paliar los síntomas y prevenir posibles complicaciones como infecciones o problemas respiratorios, y confirmar su diagnóstico anatomopatológico, descartando la presencia de cáncer laríngeo. Para garantizar la exéresis completa del laringocele, es importante realizar pruebas de imagen, ya que si quedase algún resto podría producirse su recidiva, aunque ésta es infrecuente.

Nuestro caso es un laringocele mixto, de origen probablemente iatrogénico debido a su relación con la aparición tras una submaxilectomía. Se planteó tratamiento quirúrgico debido al gran tamaño del mismo y a la clínica que presentaba la paciente, tomando la decisión de realizar un abordaje combinado por vía externa y vía endoscópica, para confirmar la exéresis completa y valorar el estado de la vía aérea tras la cirugía. Durante la cirugía hay que tener cuidado de no lesionar el nervio laríngeo superior o recurrente y sus ramos¹⁴. El tiempo de seguimiento es demasiado corto (meses) para que se haya producido recidiva, encontrándose la paciente asintomática hasta la fecha. En nuestra opinión, el tratamiento endoscópico con láser no habría permitido una exéresis completa de este gran laringocele. En este caso, no había asociación con cáncer laríngeo.

La etiopatogenia de los laringoceles suele deberse a dilataciones anormales del ventrículo laríngeo y del sáculo secundariamente a aumento de presiones como resultado de una obstrucción. Sin embargo, en esta paciente se ha sumado el hecho de la submaxilectomía previa, y el sobreesfuerzo realizado ha favorecido su expansión. Creemos por tanto que la cirugía previa causó un defecto mecánico en la pared cervical, produciendo una debilidad mucosa, y esto predispuso su desarrollo. En la literatura sólo hay unos pocos casos descritos de laringocele como complicación a largo plazo de la cirugía cervical. Entre ellos, una hemitiroidectomía y una hemilaringuectomía tras 20 y 12 años de evolución respectivamente¹⁵, una traqueostomía¹⁶, una laringuectomía subtotal¹⁷. Hasta la fecha no hay ningún caso descrito de laringocele tras submaxilectomía.

Bibliografía

1. E.Sánchez-Legaza, R.Lorenzo Núñez, Jr.Ruiz-Fito, W-Elhendí, A. Sanmartín Anaya, A. Ruiz Mondéjar. Laringocele mixto manifestado como una tumoración cervical. 2010; 38 (1).
2. Gupta S. C., Arun G. External Laryngocele. Indian Journal of Otolaryngology and Head and Neck Surgery 1998; 50 (3): 298-301.
3. Celin SE, Johnson J, Curtin H, Barnes L. The association of laryngoceles with squamous cell carcinoma of the larynx. Laryngoscope. 1991; 101 (5): 526-536.
4. Cassano L, Lobardo P, Marchese R, Pastore A. Laryngocele: three new clinical cases and review of literature. Eur Arch Otorhinolaryngol. 2000; 257: 507-511.
5. Defatta R, Verret J, Sinard R. Imaging case study of the month combined laryngocele. Ann Otol Rhinol Laryngol. 2004; 113(7): 594-596.
6. Martínez Devesa P, Ghufloor K, Lloyd S, Howard D. Endoscopic CO2 laser management of laryngocele. Laryngoscope 2002, 112 (8): 1426-30.
7. Andonegui L, Chalup M, Gastón V. Laringocele. Reporte de 2 casos y discusión. Revista Club ORL, Marzo 2003.
8. Noguera J.J., Fernández S., Panizo A., Villanueva A.. Quiste del cuarto arco branquial en la membrana tirohioidea: un difícil diagnóstico diferencial con el laringocele mixto. REV MED UNIV NAVARRA. 2007; 51 (4): 34-37.
9. Matíño E, Martínez V, León X, Quer M, Burgues J, de Juan M. Laryngocele: clinical and therapeutic study of 60 cases. Acta Otorrinolaringol Esp. 1995; 46 (4): 279-86.
10. Aydin O, Ustundag E, Iseri M, Ozkarakas H, Oguz A. Laryngeal amyloidosis with laryngocele. J Laryngol Otol 1999; 113 (4): 361-3.
11. Ramalingam WV, Nair S, Ramesh AV, Gupta DK, Kumar A. Combined laryngocele secondary to localized laryngeal amyloidosis. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg. 2012; 64 (2): 193-6.
12. Canalis RF, Maxwell DS, Hemenway W. Laryngocele; an updated review: J Otolaryngol. 1977; 6: 191-199.
13. Idígora A, Morillo A, Maristany M, Larrosa F. Piolaringocele. Presentación de un caso y revisión de la literatura. Acta Otorrinolaringol Esp. 1997; 48 (1): 73-77.
14. Myers E.N. Otorrinolaringología Quirúrgica (2 vol). 2ª ed. Elsevier, 2010
15. Marom T, Roth Y, Cinamon U. Laryngocele: a rare long-term complication following neck surgery J Voice. 2011; 25 (3): 272-4.
16. Upile T, Jerjes W, Sipaul F, El Maaytah M, Singh S, Howard D, Hopper C, Wright A. Laryngocele: a rare complication of surgical tracheostomy. BMC Surg. 2006; 27; 6:14.
17. Carrat X., Francois J.M., Carles D., Devars F., Traissac L. Laryngomucocele as an unusual late complication of subtotal laryngectomy. Ann Otol Rhinol Laryngol: 1998; 107: 703-707.