

8. Kheradmand F, Shan M, Xu C, Corry DB. Autoimmunity in chronic obstructive pulmonary disease: Clinical and experimental evidence. *Expert Rev Clin Immunol.* 2012;8:285-92.
9. Esnault VL, Audrain MA, Sesboüé R. Alpha-1-antitrypsin phenotyping in ANCA-associated diseases: One of several arguments for protease/antiprotease imbalance in systemic vasculitis. *Exp Clin Immunogenet.* 1997;14:206-13.
10. Esnault VL, Testa A, Audrain M, Rogé C, Hamidou M, Barrier JH, et al. Alpha 1-antitrypsin genetic polymorphism in ANCA-positive systemic vasculitis. *Kidney Int.* 1993;43:1329-32.
11. Wilde B, van Paassen P, Witzke O, Tervaert JW. New pathophysiological insights and treatment of ANCA-associated vasculitis. *Kidney Int.* 2011;79:599-612.
12. Flint J, Morgan MD, Savage CO. Pathogenesis of ANCA-associated vasculitis. *Rheum Dis Clin North Am.* 2010;36:463-77.

Salomé Muray Cases\*, Concepción Alcázar Fajardo y Juan B. Cabezuero Romero

Servicio de Nefrología, Hospital General Universitario Reina Sofía, Murcia, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [salomuray@gmail.com](mailto:salomuray@gmail.com) (S. Muray Cases).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2017.12.002>

0300-2896/

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

## Insuficiencia respiratoria aguda secundaria a gota tofécea crónica con afectación laríngea y bronquial: una complicación excepcional



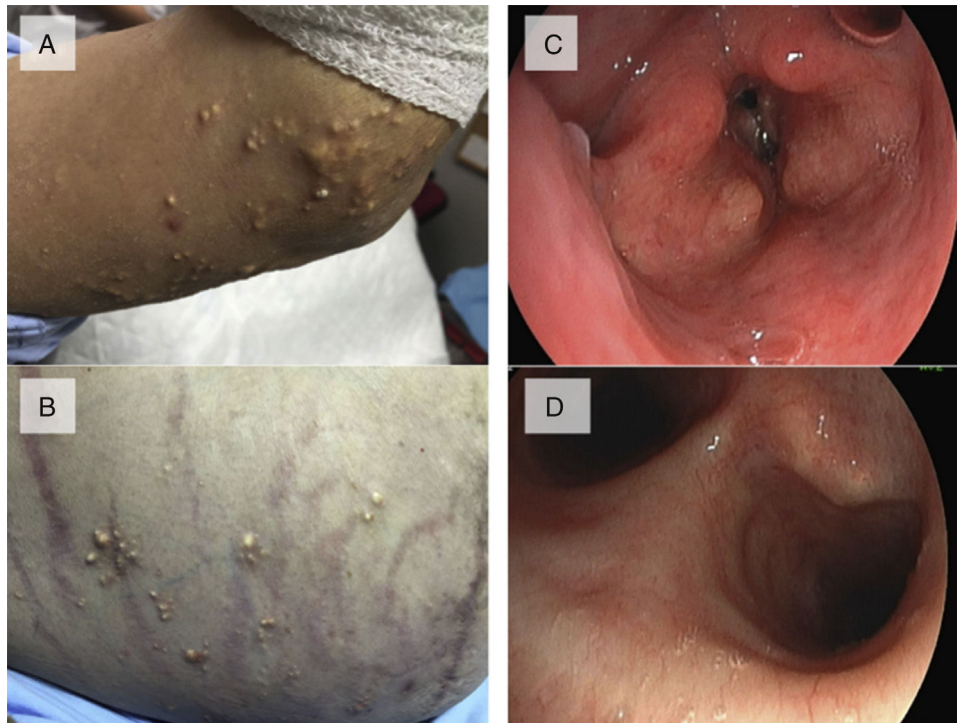
### Acute Respiratory Failure Due to Chronic Tophaceous Gout With Laryngeal and Bronchial Involvement: An Unusual Complication

Estimado Director:

La hiperuricemia mantenida (>7 mg/dl) puede conducir, en su forma de gota tofécea crónica (GTC) a la formación de granulomas (tofós) alrededor de los cristales de urato, de gran capacidad erosiva<sup>1</sup>. Raramente la GTC produce afectación laríngea, provocando obstrucción de vía aérea superior (VAS), insuficiencia respiratoria aguda (IRA)<sup>2</sup> e incluso puede afectar al árbol traqueobronquial<sup>3</sup>. Presentamos el caso de un paciente con GTC que comenzó con IRA tras un ataque agudo de gota laríngea, que precisó traqueostomía y, además, presentó tofos en el bronquio principal izquierdo (BPI), aunque finalmente desarrolló un carcinoma epidermoide en el bronquio del lóbulo superior izquierdo (BLSI). En

nuestro conocimiento es el primer caso descrito en la literatura con ambas lesiones.

Varón de 51 años, fumador de 60 paq/año, con criterios clínicos de bronquitis crónica, obesidad, hiperuricemia sintomática tratada con alopurinol 300 mg al día, aunque con cumplimiento irregular, hipertensión arterial y síndrome metabólico. Un año antes acudió a urgencias en repetidas ocasiones afecto de crisis de disnea hasta ser de reposo, atribuidas a exacerbación de la EPOC, que fueron tratadas mediante broncodilatadores y esteroides, y fue remitido a su domicilio con tratamiento sintomático. Cuatro meses más tarde acude nuevamente a urgencias afecto de una grave crisis de disnea. En la exploración se apreciaba aumento de trabajo respiratorio, cianosis central y periférica, estridor y en la gasometría: PaO<sub>2</sub> 55 mm Hg, PaCO<sub>2</sub> 60 mm Hg, pH 7,20 y HCO<sub>3</sub> 22 mmol. La Rx de tórax mostró una ligera cardiomegalia sin otros hallazgos. A la exploración cutánea se apreciaban múltiples tofos gigantes en los codos, las rodillas, las manos, con deformidades articulares, tofos palpebrales y en la pared abdominal, las piernas y los brazos (A y B). Fue valorado por neumología en el servicio de urgencias, que ante la sospecha de estenosis de la VAS solicitó evaluación urgente por ORL. La fibrola-



**Figura 1.** A y B. Tofos gotosos en la articulación del codo y en la pared abdominal. C. Broncoscopia: parálisis de cuerdas vocales en aducción con depósito toféceo sobre aritenoides. D. Broncoscopia: depósitos de gota tofécea submucosos en el bronquio principal izquierdo.

ringoscopia mostró parálisis de cuerdas vocales (CV) en aducción, con masas blanquecinas en las mismas y en aritenoides compatibles con tofos (fig. 1 C), precisando traqueostomía urgente. La fibrobroncoscopia mostró lesiones excrecentes en BPI, blanquecinas, similares a las laríngeas (fig. 1 D). Las biopsias bronquiales mostraron material fibrinohemorrágico con aislada celularidad epitelial atípica y fragmentos de pared bronquial sin alteraciones morfológicas significativas. Las biopsias laríngeas mostraron mucosa con epitelio escamoso, sin alteraciones y ausencia de malignidad. En la analítica destacaba ácido úrico de 12 mg/dl. Tras oxigenoterapia, broncodilatadores y antibióticos fue dado de alta con traqueostomía permanente. Durante su estancia se realizó una poligrafía respiratoria con traqueostomía abierta que mostró episodios de hipoventilación profunda y un IAH de 8,5/h<sup>-1</sup>. Se inició tratamiento con ventilación mecánica invasiva hospitalaria y domiciliaria nocturna a través de traqueostomía (VIVO 50 VA/C: Vt 1.000 ml, Fr 12 rpm, EPAP 6 cm H<sub>2</sub>O, Ti 1.5 s., trigger inspiratorio 3 y patrón de flujo descendente), con buen cumplimiento. Un año más tarde el paciente ingresó por hemoptisis, mostrando en la TAC tejido de densidad de partes blandas alrededor de BPI, salida del intermediario y bronquio del LSI. La fibrobroncoscopia mostró, además de las lesiones referidas en BPI, estenosis prácticamente completa del bronquio lingular y parcial del culmen con mucosa necrótica, revelando las biopsias la presencia de un carcinoma epidermoide bien diferenciado.

La afectación de tejidos de cabeza y cuello en la GTC es excepcional, y más aún la parálisis de CV secundaria a artritis gotosa aguda. Igualmente la afectación bronquial solo se ha descrito en una ocasión<sup>3</sup>. Por afectación laríngea no existen más de 20 casos publicados y ninguno en la literatura española<sup>4</sup>. Aunque existen pocos estudios que aborden la afectación laríngea en la gota, que más comúnmente afecta a la articulación cricoidoidea y raramente produce parálisis de CV, ya Garrod en 1863 describió unas «motas» de urato sódico en el cartílago aritenoides de la necropsia de un hombre con GTC<sup>5</sup>. Años más tarde Virchow reportó la presencia de urato monosódico en la CV de un paciente con extensos depósitos tofáceos<sup>6</sup>. La parálisis de CV es una causa potencial de IRA, excepcionalmente secundaria a artritis aguda<sup>2</sup>. Como en nuestro caso, la parálisis de CV se produce por atrofia y denervación de algunos músculos laríngeos implicados en la articulación cricoaritenoides, más que por depósito directo de tofos, provocando fibrosis e inflamación sobre el tejido

perineuronal, que finalmente atrofia las fibras musculares inervadas e hipertrofia las sanas<sup>7,8</sup>. Nuestro paciente presentó además tofos endobronquiales, aunque finalmente desarrolló un carcinoma epidermoide. Evidentemente, no puede establecerse una relación causa-efecto entre la gota y el carcinoma debido a su hábito tabáquico. El diagnóstico de gota cricoaritenoides puede ser establecido por los síntomas y signos que presenten pacientes con extensa GTC, como disfagia, disfonía, disnea, etc.<sup>2</sup>. La afectación laríngea por gota debe ser considerada ante una historia de hiperuricemia y artritis gotosa aguda o crónica que presenta ronquidos, odinofagia, disfagia, estridor, disnea y/o disfonía. A veces se produce un compromiso agudo de la VAS que requiere traqueostomía urgente, e incluso pueden presentar lesiones bronquiales<sup>3</sup>.

## Bibliografía

1. Perez-Ruiz F, Marimon E, Chinchilla S. Hyperuricaemia with deposition: Lastest evidence and therapeutic approach. *Ther Adv Musculoskel Dis.* 2015;7:225-33.
2. Goodman M, Montgomery W, Minette L. Pathologic findings in gouty cricoarytenoid arthritis. *Arch Otolaryngol.* 1976;102:27-9.
3. Adamson R, Matthew Lacy J, Cheng AM, Park DR. Tophus causing bronchial obstruction. *Am J Respir Crit Care Med.* 2013;188:72-3.
4. Tsikoudas A, Coatesworth AP, Martin-Hirsch DP. Laryngeal gout. *J Laryngol Otol.* 2002;116:140-2.
5. Garrod AB. Chapter XIV. En: Garrod AB, editor. *The nature and treatment of gout and rheumatic gout.* Londres: Walton and Mabely; 1859. p. 496-525.
6. Virchow R. Seltene gichtablagerungen. *Virchow's Archiv.* 1868;44:137.
7. Gacek RR, Gacek MR, Montgomery WW. Evidence for laryngeal paralysis in cricoarytenoid joint arthritis. *Laryngoscope.* 1999;109 Pt 1:279-83.
8. Lefkowitz AM. Gouty involvement of the larynx. Report of a case and review of the literature. *Arthritis Rheum.* 1965;8:1019-26.

Mar Arlandis, Virginia Molina, Sandra Vañes y Eusebi Chiner\*

Servicio de Neumología, Hospital Universitari Sant Joan d'Alacant, Alicante, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [echinervives@gmail.com](mailto:echinervives@gmail.com) (E. Chiner).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2017.12.003>

0300-2896/

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

## Linfoma pleural asociado a empiema crónico



### Pleural Lymphoma Associated With Chronic Empyema

Estimado Director:

Presentamos el caso de un varón de 78 años, exfumador, con antecedentes de tuberculosis pulmonar tratada con neumotórax terapéutico izquierdo y empiema crónico izquierdo recidivante, que presenta empeoramiento de su situación general en los últimos meses con disnea, pérdida de peso, astenia, sequedad cutánea generalizada, síntomas de insuficiencia cardíaca derecha e insuficiencia respiratoria hipercápnica crónica.

Análíticamente destacaba anemia y discreta alteración de las enzimas hepáticas. La radiografía de tórax mostraba un incremento importante del derrame pleural izquierdo previo con desplazamiento mediastínico, por lo que se le realizó una toracocentesis, obteniendo un líquido pleural de aspecto turbio compatible con un exudado de predominio polinuclear con glucosa baja, proteínas, LDH y ADA elevados, CEA normal. La citología fue negativa

para células malignas y en el cultivo no se evidenció crecimiento de bacterias ni micobacterias.

Ante la escasa mejoría clínica tras la evacuación de líquido pleural junto con los datos sugestivos de insuficiencia cardíaca derecha se realizó ecocardiografía transtorácica, objetivando una masa hipocogénica en la pared inferolateral del ventrículo izquierdo, con dilatación de la aurícula izquierda, ligero derrame pericárdico, FEVI conservada y vena cava inferior dilatada sin colapso inspiratorio. Se realizó TC toracoabdominal, apreciándose una masa de partes blandas en la pared medial y caudal del hemitórax izquierdo, de 6 × 3 cm, con infiltración pericárdica, efecto masa y pequeño derrame pericárdico asociado. Comparativamente con estudios previos se evidenció un importante incremento de la colección pleural conocida, que se encontraba ocupando la práctica totalidad del hemitórax, produciendo atelectasia compresiva del pulmón con desviación mediastínica contralateral y compresión cardíaca (fig. 1).

Se biopsió la masa de forma guiada por TC con resultado anatómopatológico compatible con linfoma no Hodgkin B difuso de células grandes, con nivel de proliferación del 70%, sin positividad