

Obstrucción respiratoria secundaria a hipertrofia de la amígdala lingual. Casos clínicos

Marcela Monge I.¹, Nicole Le Corre P.², Solange Caussade L.¹,
Héctor Navarro M.³, Ignacio Sánchez D.¹

Resumen

La amígdala lingual es una estructura que en forma poco frecuente produce sintomatología respiratoria. En la literatura pediátrica existen escasos reportes sobre este tema. El objetivo de este trabajo fue revisar la presentación clínica y de laboratorio de los casos de pacientes con diagnóstico de hipertrofia de la amígdala lingual demostrados en nuestro Centro. Se realizó un estudio retrospectivo (fichas clínicas) de 5 casos de pacientes con este diagnóstico confirmados con fibrobroncoscopia, analizando los antecedentes mórbidos previos, los síntomas de presentación, los estudios de imágenes (radiología) y de función pulmonar (espirometría). La edad de los pacientes fluctuó entre los 8 y los 14 años. En cuanto a la sintomatología, en 2 de los 5 casos se presentó como laringitis recurrente a una edad poco habitual (8 y 13 años), 1 de ellos como cuadro asmático con componente obstructivo inspiratorio y otros 2, como hallazgo espirométrico dentro del estudio de asma. Todos los pacientes demostraron alteración de la curva flujo volumen sugere de obstrucción de vía aérea alta, 3 tuvieron estudio radiológico normal (radiografía de cuello y tórax) y otros 3 estudio cintigráfico tiroideo normal. En 2 pacientes se indicó cirugía, practicándose en 1 caso; en el resto se indicó conducta expectante debido a la escasa sintomatología. En resumen, la hipertrofia de la amígdala lingual es una patología poco frecuente, pero debe tenerse presente en aquellos casos de obstrucción inspiratoria en edades poco habituales o bien cuando la curva flujo volumen así lo sugiera. Consideramos importante el seguimiento de estos pacientes para evaluar la eventual progresión de los síntomas y su manejo.

(**Palabras clave:** estridor, obstrucción vía aérea superior, niños.)

Respiratory obstruction secondary to lingual tonsil hypertrophy: a clinical report

The lingual tonsil is a normal structure that only occasionally produces respiratory symptoms. In the paediatric literature there are few reports referring to this subject. The article's objective was to review the clinical and laboratory presentation of patients with lingual tonsil hypertrophy. A retrospective study, using case notes, of 5 cases with a flexible bronchoscopy confirmed diagnosis of lingual tonsil hypertrophy was carried out. Past medical history, symptoms, x-ray and lung function studies were analyzed. The age range was 8-14 years. In 2 cases the symptomology presented as recurrent laryngitis at an unusual age (8 and 13 years). One was described as an asthmatic with an inspiratory obstructive component and 2 others had abnormal spirometric findings in their studies for asthma. All patients had an abnormal flow/volume curve suggesting upper airway obstruction. 3 cases had normal x-rays (lateral neck and chest). In 2 cases surgery was indicated but only 1 performed, the other 3 were followed up because they had few symptoms. In summary lingual tonsil is not a common pathology but should be considered in cases of inspiratory obstruction at an unusual age or if the flow/volume curve shows a decreased inspiratory loop.

(**Key words:** lingual tonsil hypertrophy, children, upper respiratory obstruction.)

1. Médico. Sección Respiratorio Pediátrico, Departamento de Pediatría, Pontificia Universidad Católica de Chile.

2. Becada de Pediatría. Departamento de Pediatría, Pontificia Universidad Católica de Chile.

3. Becado Programa Postítulo en Respiratorio Pediátrico, Pontificia Universidad Católica de Chile.

INTRODUCCIÓN

La amígdala lingual es una estructura normal correspondiente a tejido linfóide ubicado en la base de la lengua que en forma poco frecuente produce sintomatología respiratoria. Junto a las amígdalas palatinas y faríngeas constituye el anillo de Waldeyer, el cual tiene una clara función inmunológica. Dentro de la literatura pediátrica existen escasos reportes sobre este tema, la mayoría de ellos son descripciones de casos donde se le asocia a dificultad en la intubación de pacientes sin antecedentes previos, como causante de apneas obstructivas, o a la exacerbación de estas en niños con otra patología de base¹⁻³. Sin embargo, no hay grandes series pediátricas que permitan determinar asociaciones estadísticas con otras patologías ni tampoco estudios controlados que los comparen con la población sana. Se le menciona en el diagnóstico diferencial de causas de obstrucción de vía aérea alta donde destaca tiroides lingual, quiste tirogloso, quiste dermoides, linfangiomas, angiomas, adenomas, fibromas, papilomas, y linfomas entre otros. El objetivo de este trabajo fue revisar la presentación clínica y de laboratorio de los casos de pacientes con hipertrofia de la amígdala lingual que se han presentado en nuestro servicio de pediatría.

PACIENTES Y MÉTODO

Se revisaron los informes de fibrobroncoscopias realizadas desde el 1 de enero de 1996 al 31 de julio del año 2000; de un total de 353 se obtuvieron 5 casos de hipertrofia de amígdala lingual lo que equivale al 1,4% del total. A partir de esto se realizó un estudio retrospectivo de las fichas clínicas en forma completa considerando: características generales del paciente, antecedentes mórbidos previos, síntomas de presentación, diagnósticos de ingreso, evolución intra y extrahospitalaria, exámenes realizados (radiografías, función pulmonar, fibrobroncoscopias, cintigrama tiroideo), diagnósticos de egreso y evolución ambulatoria posterior de los pacientes.

El procedimiento endoscópico fue realizado con un broncoscopio flexible marca Olympus 3,6 mm bajo sedación con midazolam y morfina y reversión posterior con flumazenil y naloxona. Los cinco casos fueron

evaluados previo al diagnóstico desde el punto de vista funcional con espirometría basal, posbroncodilatador y curva flujo/volumen utilizándose para ello espirómetro marca Schiller SP-200 (Suiza). Tres de ellos tuvieron radiografía de tórax y cervical anteroposterior y lateral, tres también con radiografía cervical anteroposterior y lateral, en tres casos se efectuó además cintigrama tiroideo (con el objetivo de descartar tiroides ectópico). Todos ellos han mantenido seguimiento clínico en nuestro servicio.

RESULTADOS

En el período analizado de cuatro años, se presentaron 5 casos con el diagnóstico de hipertrofia de amígdala lingual (tabla 1). El promedio de edad fue de 12 años con un rango entre 8 y 14 años al momento del diagnóstico. La distribución por sexo fue de dos pacientes de sexo femenino y tres de sexo masculino. El caso 1 es una paciente de sexo femenino, 13 años de edad, que presentó como sintomatología tres episodios de laringitis aguda (estridor, disfonía y dificultad respiratoria) en un lapso de 6 meses, sin otra etiología que lo explicara al tercer episodio, dada la severidad y recurrencia se decidió su hospitalización. El estudio espirométrico demostró aplanamiento de la curva flujo/volumen con una relación MIF/MEF de 0,7, la radiografía cervical fue normal. Posterior al diagnóstico recibió tratamiento con corticoides inhalatorios (Budesonida)¹⁸ con buena evolución. El caso 2, sexo masculino, 8 años de edad, también presentó como sintomatología laringitis recurrente desde los 12 meses de vida, con tres hospitalizaciones por esta causa, la curva flujo/volumen demostró aplanamiento de la parte inspiratoria, no se realizó radiografía cervical y el cintigrama tiroideo fue normal. El tercer caso, sexo masculino, edad 12 años, con antecedentes de asma bronquial en tratamiento y adenoidectomía, presentó episodios intermitentes de polipnea y retracción costal asociados a sonido cervical alto referido por su madre, sin estridor ni ronquido, asociado a sensación de ocupación faríngea. El estudio de función pulmonar demostró aplanamiento de la curva flujo/volumen con relación MIF/MEF de 0,49 (figura 1) y estudio radiológico y cintigráfico normal. Se realizó cirugía de resección de la amígdala lingual en forma

Tabla 1
Sintomatología de los pacientes

N°	Edad (años)	Sexo	Síntomas y signos de presentación	Antecedentes
1	13	Femenino	Laringitis aguda II / III	NR
2	8	Masculino	Laringitis obstructiva a repetición (tres hospitalizaciones desde el año de vida)	NR
3	12	Masculino	Dificultad respiratoria. Presentaba además sensación de ocupación faríngea persistente	Asma Adenoidectomía
4	13	Masculino	Asintomático	Asma
5	14	Femenino	Asintomática	Asma Antecedentes de laringitis obstructiva a repetición hasta los ocho años

exitosa con regresión de la sintomatología alta y corrección de las curvas espirométricas. El caso 4, sexo masculino, 13 años, con antecedentes de asma bronquial, presentó como hallazgo en la espirometría (indicada como parte del control por asma bronquial) aplanamiento de la curva flujo/volumen con relación MIF/MEF normal, radiografía cervical y cintigrama tiroideo normal.

El último caso, 14 años, sexo femenino, con historia de asma y laringitis a repetición hasta los 8 años también presentó como hallazgo aplanamiento de la curva flujo/volumen (MIF/MEF 0.97) por lo que se realizó fibrobroncoscopia que demostró hipertrofia de amígdala lingual (figura 2). Como se observa en los casos recién mencionados, 2/5 pacientes se manifestaron como laringitis

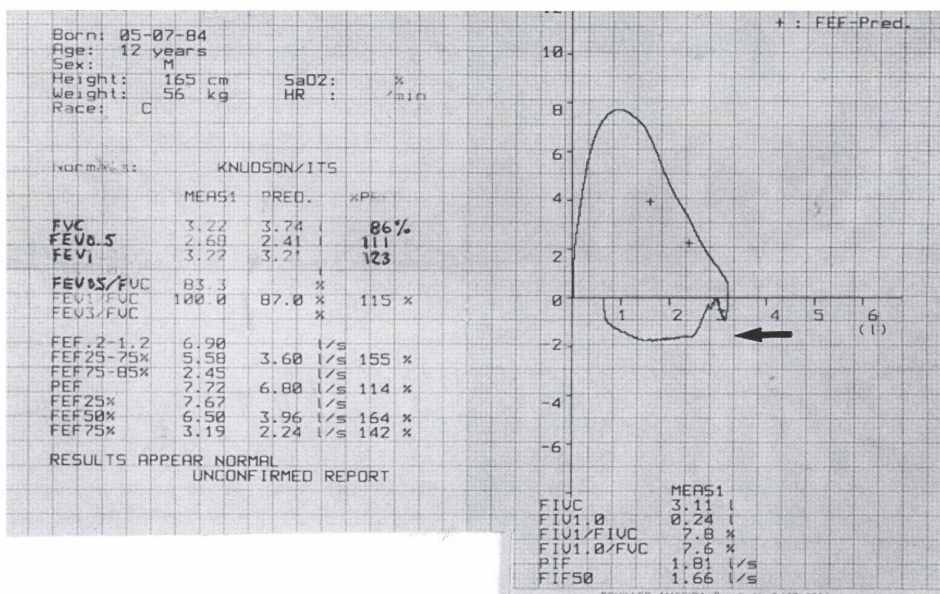


Figura 1: Estudio de función pulmonar (espirometría y curva de flujo/volumen), en un paciente portador de obstrucción de la vía aérea superior (N° 1). Note la disminución del componente inspiratorio (flecha) en relación a la forma de la curva espiratoria.

Tabla 2

Exámenes realizados en los pacientes

N°	Espirometría	Rx cervical	Cintigrama tiroideo	Hallazgos de la fibrobroncoscopia
1	Aplanamiento curva flujo/volumen Inspiratoria; MIF/MEF = 0,7	Normal	NR	Aumento de tejido linfático en la región de amígdala lingual que no colapsa epiglotis
2	Aplanamiento curva flujo/volumen Inspiratoria; MIF/MEF = 0,88	NR	Normal	Estructura de tejido linfoide compatible con amígdala lingual apoyada sobre epiglotis, compresión parcial de la vía aérea.
3	Aplanamiento curva flujo/volumen Inspiratoria; MIF/MEF = 0,49	Normal	Normal	Aumento de volumen de la base de la lengua rechazando hacia atrás la epiglotis
4	Aplanamiento curva flujo/volumen Inspiratoria; MIF/MEF = normal	Normal	Normal	Aumento de volumen sobre epiglotis con compresión parcial de la vía aérea, compatible con amígdala lingual hipertrofica.
5	Aplanamiento curva flujo/volumen Inspiratoria; MIF/MEF = 0,97	NR	NR	Masa de tejido linfático compatible con amígdala lingual, sobre epiglotis.

recurrente, en otros 2/5 fue un hallazgo espirométrico, y un paciente debutó como ruido cervical alto no clasificable que lo llevó a estudio ya descrito. Los cinco pacientes presentaron alteración curva flujo/volumen en la espirometría; tres de ellos tuvieron estudio radiológico normal (tórax y cuello). El estudio cintigráfico tiroideo previo a la cirugía para descartar tiroides ectópico fue negativo en todos. La totalidad de los casos fue sometido a fibrobroncoscopia (tabla 2). En dos pacientes se indicó cirugía, realizándose en solo un caso (caso 3). Se efectuó una resección endoscópica y hemostasia con subgala-tato de bismuto, con muy buena respuesta tanto clínica como de función pulmonar (desaparición de ruido cervical alto y corrección de curva flujo/volumen). En el otro caso, el paciente no siguió la indicación de cirugía. En el resto de los pacientes se indicó conducta expectante debido a escasa sintomatología sin constatare hasta el momento nuevas consultas por episodios de la-

ringitis aguda u otra sintomatología de vía aérea alta. Solo un paciente (caso 1) presentó síntomas luego del diagnóstico (laringitis recurrente), recibiendo budesonida como tratamiento preventivo sin volver a recaer. Los pacientes asmáticos en cuyo caso la amígdala lingual fue un hallazgo espirométrico se encuentran en tratamiento antiinflamatorio regular y broncodilatador según necesidad.

DISCUSIÓN

En este período hemos tenido la experiencia en cinco casos de hipertrofia de amígdala lingual y sintomatología respiratoria con formas de presentación variables. Estos pacientes se presentaron básicamente de dos formas: como laringitis en edades poco frecuentes de presentación (escolares) que en nuestra serie fueron dos de cinco pacientes o como una alteración de la curva

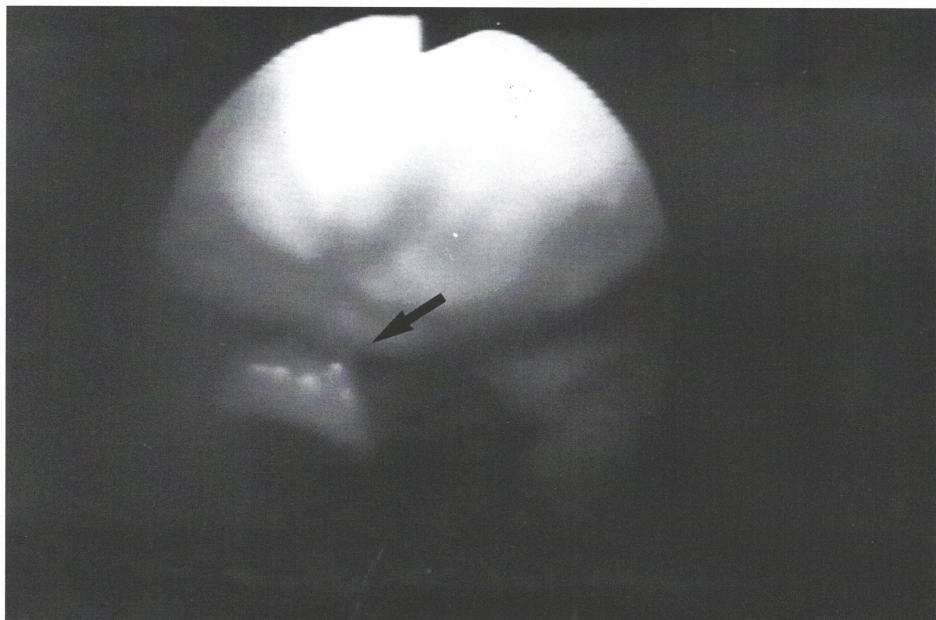


Figura 2: Imagen endoscópica en un paciente (N° 2), que demuestra amígdala lingual hipertrofica, de aspecto nodular, que se apoya en la región superior de la epiglotis (flecha).

flujo/volumen lo cual en nuestro caso nos orientó al diagnóstico en dos pacientes y lo apoyó en otros tres casos. Destaca la presencia de asma estudiada y tratada en forma concomitante en tres de los casos, siendo la hipertrofia de la amígdala lingual un componente obstructivo clínico o solo un hallazgo espirométrico.

La mayor serie estudiada de esta patología la tiene Kamata⁴ quien en 1992 analizó 204 autopsias de adultos (124 hombres y 60 mujeres) logrando clasificarlas de acuerdo a su tamaño, características histológicas y determinando que el mayor crecimiento ocurre en la segunda y luego en la quinta década de la vida. En la literatura se describe que, en la mayoría de los casos son asintomáticas y que al manifestarse lo hacen generalmente en forma leve, describiéndose odinofagia, tos crónica, sensación de irritación faríngea, disnea, disfonía, etc., lo cual concuerda con los hallazgos encontrados en este estudio⁵. Se han definido dos cuadros típicos, por un lado la hiperplasia de amígdala lingual, relacionado con atopia y en 2/3 de los casos con tonsilectomía y/o adenoidectomía (debido a hiperplasia compensadora de estos órganos); en esta serie, un

solo paciente presentó el antecedente previo de adenoidectomía. Por otro lado, también se pueden presentar como tonsilitis lingual aguda caracterizado por odinofagia, fiebre y leucocitosis cuya etiología puede ser infecciosa (*Streptococo* grupo A), o asociarse a la presencia de un cuerpo extraño y al consumo de alcohol o tabaco. Al igual que en niños, en los adultos la mayoría de los casos son asintomáticos; se describen casos diagnosticados como hallazgo durante una cirugía al presentar obstrucción de la vía aérea al intubar al paciente^{1,7,8} o como agravante de cuadros obstructivos de vía aérea alta en pacientes con patología de base (síndrome de Down, obesos)^{2, 3,11}. Se presentan además como una causa poco frecuente de apnea obstructiva del sueño con remisión de los síntomas luego de la tonsilectomía^{9, 10}. El manejo de esta patología es variable y dependiente de la sintomatología que presenta, la patología asociada y la severidad en la evolución. En la mayoría de los casos el manejo debe ser expectante, en esta serie, dada la buena evolución del cuadro tres de los cinco pacientes solo requirieron observación. Sin embargo, es esencial el seguimiento del paciente, ob-

servar la aparición de nueva sintomatología o la recurrencia de esta para su manejo oportuno (en este estudio un paciente presentó durante el seguimiento de cuadros de laringitis recurrente indicándose corticoides inhalatorios con buena respuesta). En ocasiones la sintomatología llega a ser muy severa siendo necesaria la indicación quirúrgica, lo que ocurrió en dos de los pacientes. En la literatura actual se menciona como tratamiento tanto la cirugía tradicional (realizada en un paciente de esta serie con gran éxito), como otras nuevas entre las que destacan la criocirugía y láser con CO₂. Esta última presenta menores complicaciones posoperatorias y menos días de hospitalización debido a la mejor hemostasia que logra y a la cauterización de terminales nerviosos lo que lleva a disminución del dolor y edema posoperatorio¹².

Se ha descrito que en los casos de tonsilitis lingual aguda de origen infeccioso (en nuestro estudio no se encontró ningún caso) existe buena respuesta al uso de antibióticos habituales. Se debe drenar en caso de presentar un absceso y la cirugía se indica en caso de resistencia antibiótica, sintomatología persistente o recurrente e impactación de cuerpo extraño en la amígdala lingual⁶.

En resumen, la amígdala lingual es una estructura normal que rara vez provoca síntomas respiratorios, existiendo escasa información pediátrica sobre este tema. Se analizan cinco casos de amígdala lingual y síntomas respiratorios concluyéndose que la laringitis recurrente y las alteraciones de la curva flujo/volumen son las dos presentaciones más habituales en nuestra serie. Es esencial el seguimiento de los pacientes para evaluar su sintomatología, la eventual recurrencia del cuadro y su manejo apropiado.

REFERENCIAS

1. Schumacher J, Standl T.: Hyperplasia of lingual tonsil as an unexpected intubation obstruction in a preschool child. *Anesthesiol Intensivmed Notfallmed Schmerzther* 1997; 32: 325-7.
2. Phillips DE, Rogers JH: Down's syndrome with lingual tonsil hypertrophy producing sleep apnea. *J Laringol Otol* 1988; 102: 1054-5.
3. Guarisco JL, Littlewood SC, Butcher RB: Severe upper airway obstruction in children secondary to lingual tonsil hypertrophy. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1990; 99: 621-4.
4. Kamata T: Histological study of human lingual tonsil, especially changes with aging. *Nippon Jibiinkoka Gakkai Kaiho* 1992; 95: 825-43.
5. Golding-Wood DG, Whittet HB: The lingual tonsil. A neglected symptomatic structure?. *J Laringol Otol* 1989; 103: 922-5.
6. Puar RK, Pura HS: Lingual tonsillitis. *South Med J* 1986; 79: 1126-8.
7. Fundingsland B, Benumof J: Difficulty using a laryngeal mask airway in a patient with lingual tonsil hyperplasia. *Anesthesiology* 1996; 84: 1265-6.
8. Salvi L, Juliano G, Zucchetti M, Sisillo E: Hypertrophy of the lingual tonsil and difficulty in airway control. A clinical case. *Minerva Anestesiol* 1999; 65: 549-53.
9. Dundar A, Gerek M, Ozunlu A, Yetiser S: Patient selection and surgical result in obstructive sleep apnea. *Eur Arch Otorhinolaryngol Suppl* 1997; 1 (Supl): 157-61.
10. Dundar A, Ozunlu A, Sahan M, Ozgen F: Lingual tonsil hypertrophy producing obstructive sleep apnea. *Laryngoscope* 1996; 106: 1167-9.
11. Dell RG: Upper airway obstruction secondary to lingual tonsil. *Anaesthesia* 2000; 55: 393.
12. Savay L, Jori J, Czigner J: Laser lingual tonsillectomy. *Acta Chir Hung* 1992-93; 33: 87-92.
13. Woutersb B, van Overbeek JJ, Buijter CT, Hoeksema PE: Laser surgery in lingual tonsil hyperplasia. *Clin Otolaryngol* 1989; 14: 291-6.
14. Joseph M, Reardon E, Goodman M: Lingual tonsillectomy: a treatment for inflammatory lesions of the lingual tonsil. *Laryngoscope* 1984; 94: 179-84.
15. Neinas F, Gorman C, Devine K: Lingual thyroid: Clinical characteristics of 15 cases. *Ann Int Med* 1973; 79: 205-10.
16. Kamat M, Kulkarny P, Desai P: Lingual thyroid: a review of 12 cases. *Br J Surg* 1979; 66: 537-9.
17. Seifert G: Lymphoid lesions of the oral cavity. *Pathol Res Pract* 1980; 167: 179-203.
18. Klassen TP, Feldman ME, Walters LK, Sutcliffe T, Rowe PC: Nebulized budesonide for children with mild to moderate croup. *N Engl Med* 1994; 331: 285-9.