

Disfonía como manifestación de fuga endoprotésica de aneurisma de aorta: Un caso de síndrome de Ortner.

Dysphonia as a manifestation of aortic aneurysm endoprosthesis leak: A case of Ortner's syndrome

Víctor Alonso Vargas-Rubio¹

Vargas-Rubio V. Disfonía como manifestación de fuga endoprotésica de aneurisma de aorta: Un caso de síndrome de Ortner. Rev Soc Peru Med Interna. 2021;34(4):181-185. DOI: <https://doi.org/10.36393/spmi.v34i4.635>

RESUMEN

Se presenta el caso de un varón de 49 años con antecedente de aneurisma de aorta descendente tratado con endoprótesis, que acude por disfonía de dos meses de evolución como síntoma principal. Por nasolaringoscopia y estudio de imágenes se determina que la disfonía es causada por una parálisis de cuerda vocal izquierda, ante la sospecha de daño del nervio laríngeo recurrente izquierdo se realiza tomografía de tórax que muestra un aneurisma residual con fuga endoprotésica, que explica el daño de este nervio. Se concluye en un Síndrome de Ortner como manifestación de endofuga.

Palabras claves: síndrome de Ortner, síndrome cardiovocal, Aneurisma de aorta.

ABSTRACT

We present the case of a 49-year-old man with a history of descending aortic aneurysm treated with endoprosthesis, who presented with dysphonia of two months of evolution as the main symptom. Nasolaryngoscopy and imaging study determine that the dysphonia is caused by a left vocal cord paralysis; when suspected of damage to the left recurrent laryngeal nerve, a chest tomography is performed that shows a residual aneurysm with endoprosthesis leakage, which explains the damage of this nerve. It is concluded in an Ortner syndrome as a manifestation of endoleaks.

Key words: Ortner syndrome, Cardiovascular syndrome, Aortic aneurysm.

INTRODUCCIÓN

La disfonía es la alteración en la calidad, tono, volumen o esfuerzo de la voz que perjudica la comunicación y/o afectar la calidad de vida y tiene que ser reconocida por un médico.¹ Es un síntoma bastante común, generalmente causado por patologías benignas o condiciones autolimitadas, pero a veces es la manifestación de una enfermedad que puede comprometer la vida del paciente.^{1,2}

Dentro de las posibles causas de disfonía tenemos las inflamatorias o irritantes, neoplásicas, asociadas a enfermedades sistémicas y las neuromusculares, en esta última se incluye patologías del nervio laríngeo recurrente.³ La parálisis de este nervio tiene causas laríngeas y extralaríngeas, siendo la causa más frecuente de estas últimas el cáncer de pulmón.⁴ El síndrome de Ortner es la disfonía causada por la parálisis del nervio laríngeo recurrente izquierdo debido a enfermedad cardiovascular.⁵ Se presenta el caso de un paciente con antecedente de aneurisma de aorta torácica tratado con endoprótesis que acude al Servicio de Emergencia con disfonía como síntoma principal.

¹ Médico internista. Servicio de Emergencia, Hospital Nacional Arzobispo Loayza, Lima, Perú.



PRESENTACIÓN DEL CASO

Varón de 49 años, procedente de San Martín de Porres, Lima, con el antecedente de hace dos años presentar un aneurisma de aorta descendente tratado con endoprótesis. En aquella oportunidad presentó tos con expectoración blanquecina, disnea a grandes esfuerzos y dolor torácico que se resolvieron con el tratamiento quirúrgico. Hace cuatro meses presentó infección por virus SARS-CoV-2, caracterizada por tos seca exigente, no requirió hospitalización. Además, tenía el antecedente de hipertensión arterial desde hace tres años con tratamiento irregular de enalapril 10 mg dos veces al día. Como hábitos nocivos es fumador desde los 25 años, aproximadamente dos cigarrillos al día.

Acudió al Servicio de Emergencia con un tiempo de enfermedad de tres meses, de inicio insidioso y curso progresivo, caracterizado por tos seca, que con el pasar del tiempo se tornó productiva, con expectoración blanquecina,

y exigente. Hace dos meses se agregó disfonía y hace un mes presentó disfagia a sólidos, dolor torácico y disnea al esfuerzo. Bajó de peso de 10 kg en los últimos tres meses. Al examen físico se le halló con funciones vitales estables, adelgazado, crónicamente enfermo. A nivel cardiovascular, choque de punta no desplazado, ruidos cardiacos rítmicos de buena intensidad, no soplos. En respiratorio, el murmullo vesicular pasaba bien en ambos campos pulmonares, se auscultaban sibilantes a predominio del hemitórax izquierdo.

Se le realiza una radiografía de tórax (Figuras 1 y 2). Fue evaluado por el servicio de otorrinolaringología y se le realizó una nasolaringoscopia, hallándose una parálisis de la cuerda vocal izquierda.

En la radiografía de tórax se apreció una imagen radiopaca homogénea, de bordes definidos, que llega a abarcar todas las porciones del mediastino y desplaza las estructuras al



Figura 1

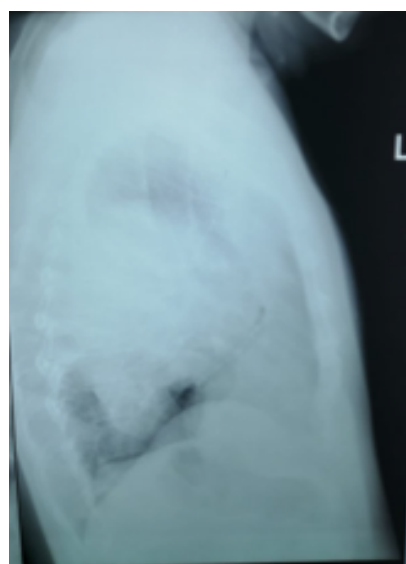


Figura 2

Radiografía de tórax, postero-anterior (Figura 1) y radiografía de tórax lateral izquierda (Figura 2). Aneurisma de aorta con material protésico.



Figura 3. Tomografía de cuello con contraste, en corte coronal, donde se aprecia signos de parálisis cordal izquierda; dilatación ipsilateral del ventrículo laríngeo (estrella amarilla) y pérdida del arco subglótico normal por debajo de la cuerda vocal izquierda (flecha roja).

lado contralateral, que corresponde a un aneurisma de aorta, y en su interior se observa la presencia de material protésico, que podría deberse a la existencia de un aneurisma residual por el antecedente del paciente.

Ante la sospecha de síndrome de Ortner, se tomó una tomografía de cuello con contraste (Figura 3) para descartar alguna causa extrínseca a nivel cervical de esta parálisis vocal izquierda y una tomografía de tórax con contraste (Figuras 4 y 5) para evidenciar alguna alteración en el aneurisma de aorta o en la endoprótesis torácica.

En la tomografía de cuello se confirmó la parálisis de la cuerda vocal izquierda y no se apreciaron lesiones tumorales. En la tomografía de tórax con contraste se pudo apreciar el aneurisma de aorta con extenso hematoma crónico y endoprótesis, a nivel de su tercio medio distal, se observa fuga de sustancia de contraste y desviación de estructuras del mediastino en sentido contralateral, lo que



Figura 4

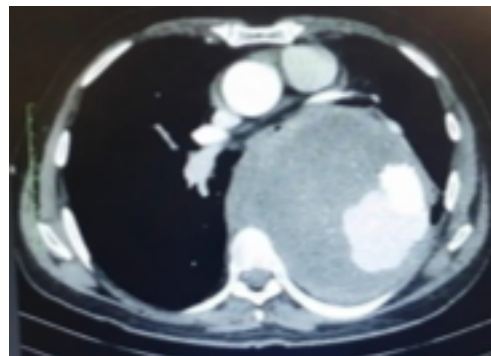


Figura 5

Tomografía de tórax con contraste, en corte coronal (Figura 4) y corte axial (Figura 5). Se aprecia el aneurisma residual con fuga endoprotésica a nivel de la aorta descendente.



Figura 6. Reconstrucción 3D de aorta torácica donde se aprecia material protésico que a nivel de tercio medio distal de aorta descendente presenta fuga endoprotésica (flecha amarilla).

explicaría la aparición de los nuevos síntomas del paciente (Figuras 4-6).

El Servicio de Cirugía de Tórax lo catalogó como un *endoleak* tipo III y después del tratamiento quirúrgico el diagnóstico postoperatorio fue de un *endoleak* tipo Ib-III de aorta torácica.

Con respecto al seguimiento del paciente a dos meses del tratamiento endovascular, se ha visto mejoría de la disnea, ahora la presenta a grandes esfuerzos, no presenta disfagia, niega pérdida de peso, niega dolor torácico, pero

aún persiste la tos que no productiva y poco exigente. La disfonía es el síntoma que aún persiste.

DISCUSIÓN

El síndrome de Ortner fue descrito por primera vez en 1897 por Norbert Ortner, quien evaluó tres pacientes con disfonía debida a parálisis del nervio laríngeo recurrente izquierdo asociada a crecimiento de la aurícula izquierda por estenosis mitral.⁶ En los años siguientes se pudo ver que esta patología estaba relacionada a otros trastornos cardiovasculares como cardiopatías congénitas, hipertensión pulmonar primaria, aneurisma de aorta torácica, insuficiencia mitral y mixoma auricular.^{7,8} Por tal motivo, en 1958, Stocker y Enterline acuñaron el término de síndrome cardiovocal.⁹ Actualmente, estos dos términos se usan de manera indistinta.¹⁰⁻¹⁴

El nervio laríngeo recurrente o inferior, tanto izquierdo como derecho, es una rama del nervio vago y tiene una salida diferente a cada lado; el derecho se origina a nivel cervical, rodeando la arteria subclavia, mientras que el izquierdo tiene su origen a nivel torácico rodeando al cayado aórtico a través de la ventana aortopulmonar y por detrás del ligamento arterioso, luego ambos ascienden por el surco traqueoesofágico para introducirse en la laringe.¹⁵ La parálisis del nervio laríngeo recurrente izquierdo es más frecuente que el derecho, además es más frecuente en varones.¹⁶ Las causas **más** frecuentes son el cáncer de pulmón (42%) y la manipulación quirúrgica (24%); y, las causas idiopáticas que incluyen al **síndrome cardiovocal** **representan** el 11% de los casos, y dentro de estas tenemos el crecimiento de aurícula izquierda (8%)¹⁸ y la relacionada a aneurisma de aorta (0,3%) de los casos.¹⁹

Dentro de la fisiopatología, Ortner creía que la aurícula izquierda crecida comprimía al nervio laríngeo recurrente, ocasionando isquemia y su posterior degeneración, pero estudios realizados por Fetterolf y Norris determinaron



que la aurícula izquierda crecida empujaba a la arteria pulmonar izquierda y esta comprimía al nervio contra la aorta a nivel del ligamento arterioso, cuyo espacio es de cuatro milímetros.²⁰ Este mecanismo también explica la compresión del nervio laríngeo recurrente izquierdo por otras estructuras cercanas a la ventana aortopulmonar que ocasionan síndrome de Ortner.^{21,22}

El aneurisma es definido como la dilatación de una arteria por lo menos 1,5 veces su tamaño normal.²³ Los aneurismas de aorta torácica son más frecuentes en los varones y a edades avanzadas, generalmente son asintomáticos y solo el 5% presenta alguna sintomatología, dentro de estas la disfonía se presenta en solo 1,6% de los pacientes con aneurisma de aorta torácico.^{24,25}

Con respecto a las manifestaciones del síndrome cardiovocal causado por aneurisma del arco aórtico tenemos que la disfonía se presenta como síntoma principal en el 39% de los casos, seguido de disnea (19%), tos (19%), dolor torácico (17%), disfagia (11%), fiebre (5%) y pérdida de peso (5%) como síntomas más frecuentes.²⁶ El paciente presentado tuvo la mayoría de estas manifestaciones clínicas.

Para el diagnóstico de síndrome de Ortner es importante realizar una laringoscopia para ver la posición de la cuerda vocal y la presencia de lesiones intrínsecas, además se debe obtener un estudio de imagen donde se pueda apreciar todo el recorrido del nervio para ubicar el sitio de lesión.²⁷ Dentro de los hallazgos de parálisis cordal en tomografía de corte axial tenemos la dilatación del seno piriforme ipsilateral, rotación medial y engrosamiento del pliegue aritenoepiglótico, dilatación del ventrículo laríngeo ipsilateral; en el corte coronal, durante apnea tenemos la pérdida del arco subglótico debajo de la cuerda vocal aducida, además se pueden observar los otros signos ya mencionados.²⁸ En este caso, se encontró signos de parálisis vocal izquierda tanto en la nasolaringoscopia como en tomografía de cuello con contraste, además, con la tomografía de tórax con contraste se pudo determinar que la fuga endoprotésica fue la causa del síndrome de Ortner, ya que, al producir una distensión de las paredes del aneurisma residual hubo compresión de las estructuras cercanas a la ventana aortopulmonar incluyendo al nervio laríngeo recurrente izquierdo explicando la aparición de los síntomas en el paciente.

El *endoleak* o endofuga es una complicación del tratamiento de los aneurismas aórticos que se realiza mediante la instalación de una endoprótesis en su lumen por vía endovascular²⁹; y, se clasifican de acuerdo al origen del flujo en:³⁰

Tipo I, se define como la presencia de flujo sanguíneo fuera del lumen protésico y adyacente al sitio de anclaje proximal (IA) o distal (IB), son más comunes en las endoprótesis torácicas y requieren reparación inmediata.

Tipo II, es el más común, se produce por un flujo retrógrado desde una rama arterial excluida por la endoprótesis. Siendo el manejo controversial ya que se puede optar por el seguimiento hasta resolución espontánea o embolizar la arteria excluida.

Tipo III, es una fuga a través de la endoprótesis secundaria a rotura y/o defecto de la endoprótesis o también por falla del sello entre los módulos protésicos; la reparación es inmediata.

Tipo IV, se presenta por una porosidad de la endoprótesis asociada a anticoagulación intensa del paciente; se caracteriza por salida de contraste a través de la endoprótesis, sin identificarse defecto estructural. El manejo se basa en corrección de la anticoagulación.

Tipo V, se define como una expansión aneurismática, sin fuga identificable de contraste hacia el aneurisma, luego de una reparación endovascular exitosa.

En este caso, el paciente fue sometido a una reparación endovascular por tratarse de un *endoleak* tipo III que requería reparación inmediata; y, además, en el reporte operatorio se informó el hallazgo de un *endoleak* tipo IB asociado.

En un estudio de 58 pacientes con disfonía por síndrome de Ortner, se obtuvo que, posterior al manejo quirúrgico, en el 45% la disfonía se resolvió, en 29% mejoró, en 22% persistió y en 4% se exacerbó, siendo el promedio de seguimiento de ocho meses y medio.³¹ Esta complicación se puede deber al tiempo prolongado en el cual el nervio laríngeo recurrente estuvo expuesto a la compresión, ya que el tiempo desde la aparición de la disfonía hasta la intervención fue de cuatro meses aproximadamente en nuestro caso.

En conclusión, ante un paciente con disfonía mayor de dos semanas y que no tenga síntomas asociados de patologías benignas se debe buscar una causa más grave que explique este síntoma, aún más si es que el paciente tiene antecedente de patología cardiovascular y/o torácica. También podemos concluir que ante un paciente con antecedente de aneurisma de aorta torácica tratada con endoprótesis que presenta disfonía súbita se debe descartar la presencia de una endofuga.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Stachler RJ, Francis DO, Schwartz SR, Damask CC, Digoy GP, Krouse HJ, et al. Clinical Practice Guideline: Hoarseness (Dysphonia) (Update). *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018 Mar;158(1_suppl): S1-S42. doi: 10.1177/0194599817751030. Erratum in: *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018 Aug;159(2):403. PMID: 29494321.
2. Sanz L, Rodríguez M, Bau P, Rivera T. Disfonía. *Medicine: Programa de Formación Médica Continuada Acreditado.* 2015;11(91):5433-5444. ISSN 0304-5412, <https://doi.org/10.1016/j.med.2015.11.013>.
3. Feierabend RH, Shahram MN. Hoarseness in adults. *Am Fam Physician.* 2009 Aug 15;80(4):363-70. PMID: 19678604.
4. Benninger MS, Gillen JB, Altman JS. Changing etiology of vocal fold immobility. *Laryngoscope.* 1998 Sep;108(9):1346-50. doi: 10.1097/00005537-199809000-00016. PMID: 9738754.
5. Lim AHJ, Chia MYC. The hoarse voice of an aortic aneurysm rupture: Ortner's syndrome. *J Emerg Med.* 2020 Nov;59(5): e199-e201. doi: 10.1016/j.jemermed.2020.07.014. Epub 2020 Aug 20. PMID: 32828601.
6. Verbeke X, Vliebergh J, Sauer M, Leys M. Hoarseness revealing Ortner's syndrome. *Acta Clin Belg.* 2015 Jun;70(3):230. doi: 10.1179/2295333715Y.0000000003. PMID: 26103539.
7. Shahul HA, Manu MK, Mohapatra AK, Magazine R. Ortner's syndrome. *BMJ Case Rep.* 2014 Mar 11;2014: bcr2013200950. doi: 10.1136/bcr-2013-200950. PMID: 24618861; PMCID: PMC3962976.
8. Plastiras SC, Pamboucas C, Zafiriou T, Lazaris N, Toumanidis S. Ortner's syndrome: a multifactorial cardiovocal syndrome. *Clin*

- Cardiol. 2010 Jun;33(6): E99-100. doi: 10.1002/clc.20646. PMID: 20552619; PMCID: PMC6653379.
9. Stocker HH, Enterline HT. Cardio-vocal syndrome: laryngeal paralysis in intrinsic heart disease. *Am Heart J.* 1958 Jul;56(1):51-9. doi: 10.1016/0002-8703(58)90158-3. PMID: 13545147.
 10. Coen M, Leuchter I, Sussetto M, Banfi C, Giraud R, Bendjelid K. Progressive dysphonia: Ortner syndrome. *Am J Med.* 2018 Dec;131(12): e494-e495. doi: 10.1016/j.amjmed.2018.08.004. Epub 2018 Aug 20. PMID: 30138597.
 11. Tan TXZ, Balakrishnan T, Lam MHH, Chui YY, Cheng LT. A case of hoarseness with acute back pain - cardiovocal syndrome revisited. *J Radiol Case Rep.* 2019 Jul 31;13(7):21-28. doi: 10.3941/jrcr.v13i7.3580. PMID: 31558964; PMCID: PMC6738490.
 12. Gorospe L, Fernández-Méndez MÁ, Ayala-Carbonero AM, García-Poza J, González-Gordaliza C. Ortner's Syndrome Secondary to a Huge Left Atrium. *Ann Thorac Surg.* 2015 Aug;100(2):732. doi: 10.1016/j.athoracsurg.2015.04.049. PMID: 26234855.
 13. Gulel O, Elmali M, Demir S, Tascanov B. Ortner's syndrome associated with aortic arch aneurysm. *Clin Res Cardiol.* 2007 Jan;96(1):49-50. doi: 10.1007/s00392-006-0454-z. PMID: 17252183
 14. Agarwal T, Vijay J, Kumar B, et al. (August 27, 2020) Cardiovascular syndrome secondary to thoracic aortic aneurysm: An old sign revisited. *Cureus.* 2020; 12(8): e10087. doi:10.7759/cureus.10087
 15. Mathai J, Swapna UP. Hoarseness -As a presenting feature of aortic arch aneurysm. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2006 Jul;58(3):309-10. doi: 10.1007/BF03050855. PMID: 23120328; PMCID: PMC3450419.
 17. Girardi, Fabio Muradás; Ardenghi, Rodrigo Machado. Ortner syndrome. *Clinical & Biomedical Research.* [S.l.], v. 40, n. 1, July 2020. <https://seer.ufrgs.br/hcpa/article/view/95609>
 18. Mulpuru SK, Vasavada BC, Punukollu GK, Patel AG. Cardiovascular syndrome: a systematic review. *Heart Lung Circ.* 2008 Feb;17(1):1-4. doi: 10.1016/j.hlc.2007.04.007. Epub 2007 Dec 4. PMID: 18055261.
 19. Si Wei Kheok, Parag Ratnakar Salkade, Ajay Bangaragiri, Natalie Si Ya Koh, Robert Chun Chen. *Current Problems in Diagnostic Radiology.* Cardiovascular hoarseness (Ortner's syndrome): A pictorial review, current problems in diagnostic radiology. 2021;50(5):749-754. <https://doi.org/10.1067/j.cpradiol.2020.09.015>.
 20. Hurtarte Sandoval AR, Carlos Zamora R, Gómez Carrasco JM, Jurado Ramos A. Ortner's syndrome: a case report and review of the literature. *BMJ Case Rep.* 2014 Jul 17;2014: bcr2013202900. doi: 10.1136/bcr-2013-202900. PMID: 25035442; PMCID: PMC4112344.
 21. George Fetterolf and George William Norris. The anatomical explanation of the paralysis of the left recurrent laryngeal nerve found in certain cases of mitral stenosis. *The American Journal of the Medical Sciences.* 1911;141: 637.
 22. Samuel Alpert, Recurrent laryngeal nerve palsy in mitral stenosis. *American Heart Journal.* 1943;25(5):689-692. [https://doi.org/10.1016/S0002-8703\(43\)90593-9](https://doi.org/10.1016/S0002-8703(43)90593-9).
 23. Ari R, Harvey WP, Hufnagel CA. Etiology of hoarseness associated with mitral stenosis: improvement following mitral surgery. *Am Heart J.* 1955 Jul;50(1):153-60. doi: 10.1016/0002-8703(55)90261-1. PMID: 14387945.
 24. Calero A, Illig KA. Overview of aortic aneurysm management in the endovascular era. *Semin Vasc Surg.* 2016 Mar;29(1-2):3-17. doi: 10.1053/j.semvascsurg.2016.07.003. Epub 2016 Jul 15. PMID: 27823587.
 25. Bouchentouf, R. (2020). REPORTE DE CASO Síndrome cardiovascular causado por un gigante aneurisma de la aorta torácica. *Rev Soc Peru Med Interna* 32 (4): 138-140
 26. Chen RF, Lin CT, Lu CH. Ortner's syndrome -a rare cause of unilateral vocal cord paralysis: a case report. *Kaohsiung J Med Sci.* 2009 Apr;25(4):203-6. doi: 10.1016/S1607-551X(09)70061-0. PMID: 19502137.
 27. Yuan SM. Hoarseness due to aortic arch aneurysms. *Braz J Cardiovasc Surg.* 2020 Dec 1;35(6):970-976. doi: 10.21470/1678-9741-2019-0352. PMID: 33306323; PMCID: PMC7731862.
 28. Zangirolami AC, Oliveira FV, Tepedino MS. Ortner's syndrome: Secondary laryngeal paralysis caused by a great thoracic aorta aneurysm. *Int Arch Otorhinolaryngol.* 2015 Apr;19(2):180-2. doi: 10.1055/s-0034-1397331. Epub 2015 Jan 5. PMID: 25992177; PMCID: PMC4399202.
 29. Christina M. Paquette, Daria C. Manos, Brian J. Psooy. Unilateral Vocal Cord Paralysis: A Review of CT Findings, Mediastinal Causes, and the Course of the Recurrent Laryngeal Nerves. *Journal Article.* 2012. *RadioGraphics.* 721-740, 10.1148/rg.323115129 [doi]. PMID - 22582356
 30. Alwayay Q, Pablo, Schiappacasse F, Giancarlo, Labra W, Andrés, Sakamoto G, Cristián, & Ramos G, Cristóbal. (2015). Revisión pictográfica de endoleaks (endofugas). *Revista chilena de radiología.* 2015; 21(2):66-69. <https://dx.doi.org/10.4067/S0717-93082015000200006>.
 31. Chen J, Stavropoulos SW. Management of Endoleaks. *Semin Intervent Radiol.* 2015 Sep;32(3):259-64. doi: 10.1055/s-0035-1556825. PMID: 26327744; PMCID: PMC4540624.
 32. Yuan, Shi-Min. Ortner (cardio-vocal) syndrome: A collective review. *The Kuwait Medical Journal.* 2014;46:3-13.

CORRESPONDENCIA:

Víctor Alonso Vargas-Rubio
victor.vargas.rubio@upch.pe

Fecha de recepción: 26-10-2021.

Fecha de aceptación: 02-11-2021

Conflicto de intereses: El autor declara no tener conflicto de intereses.
Financiamiento: por el autor.