

Adução Paradoxal das Pregas Vocais: Dificuldades no Diagnóstico

Paradoxical Vocal Fold Adduction: Diagnostic Difficulties

Ana Isabel Sequeira¹, Bruno Corte², Cecília Pereira³, Francisco Pereira³, Beatriz Sousa¹

Acta Pediatr Port 2018;49:270-3
DOI: 10.21069/APP.2018.12042

Resumo

A adução paradoxal das pregas vocais caracteriza-se por encerramento das pregas vocais durante a inspiração. A subsequente obstrução ao fluxo de ar manifesta-se por estridor e dispneia, simulando sintomatologia asmática. Apresenta-se o caso clínico de uma adolescente de 13 anos admitida recorrentemente na urgência ao longo de um ano por dificuldade respiratória e estridor, após exposição a desodorizante em aerossol. Dada a recorrência e refratariedade das crises à terapêutica anti-asmática instituída, foi colocada como hipótese de diagnóstico uma adução paradoxal das pregas vocais, confirmada por nasofibrolaringoscopia com prova de provocação. Realizou treino vocal em terapia da fala com evolução favorável. O presente relato ilustra as dificuldades no diagnóstico da adução paradoxal das pregas vocais. A recorrência das crises apesar dos tratamentos instituídos motivou a revisão do diagnóstico. Apesar de pouco frequente, devemos estar alerta para a possibilidade da ocorrência desta patologia.

Palavras-chave: Adolescente; Disfunção da Prega Vocal/diagnóstico; Disfunção da Prega Vocal/reabilitação; Obstrução das Vias Respiratórias; Sinais e Sintomas Respiratórios

Abstract

Paradoxical vocal fold adduction is characterised by adduction of the vocal folds during inspiration. The subsequent variable obstruction to air flow is manifested by stridor and dyspnoea, mimicking asthma symptoms. The authors report the case of a 13-year-old female adolescent, admitted several times to the emergency department with respiratory distress and stridor after accidental exposure to deodorant sprays. Due to the recurrence of the attacks and refractoriness to pharmacological treatment, the hypothesis of paradoxical vocal fold adduction was discussed, which was confirmed when laryngoscopy with provocation testing showed inspiratory adduction of the vocal folds. The patient was referred for speech therapy and had a favourable evolution. This report illustrates the difficulties inherent in the diagnosis of vocal fold dysfunction. The recurrence of crises and refractoriness to pharmacological treatment led to a review of the case. Although paradoxical adduction of the vocal folds is not a common condition, we should be aware of this clinical entity.

Keywords: Adolescent; Airway Obstruction; Signs and Symptoms, Respiratory; Vocal Cord Dysfunction/diagnosis; Vocal Cord Dysfunction/rehabilitation

Introdução

A adução paradoxal das pregas vocais (APPV) é uma patologia laríngea caracterizada por encerramento das pregas vocais durante o ciclo respiratório, predominantemente na inspiração.¹⁻³ A subsequente obstrução variável ao fluxo de ar manifesta-se por estridor e dispneia, mimetizando sintomatologia asmática.⁴⁻⁶

A etiopatogénese desta entidade é multifatorial. Vários fatores desencadeantes foram identificados, tais como infeções das vias aéreas superiores, refluxo gastroesofágico, inalação de irritante, exercício físico, exposição a temperaturas extremas e fatores psicológicos.^{1,2,4,6}

O diagnóstico definitivo requer a visualização da adução paradoxal das pregas vocais durante o período de crise. A abordagem terapêutica é essencialmente não farmacológica, sendo que a maioria dos doentes beneficia com terapia da fala.

Os autores apresentam um caso clínico de APPV com

1. Serviço de Pediatria, Unidade Local de Saúde do Alto Minho, Hospital de Santa Luzia, Viana do Castelo, Portugal

2. Serviço de Medicina Física e Reabilitação, Unidade Local de Saúde do Alto Minho, Hospital de Santa Luzia, Viana do Castelo, Portugal

3. Serviço de Otorrinolaringologia, Unidade Local de Saúde do Alto Minho, Hospital de Santa Luzia, Viana do Castelo, Portugal

Correspondência

Ana Isabel Sequeira

3582@ulsam.min-saude.pt

Unidade Local de Saúde do Alto Minho, Estrada de Santa Luzia, 4904-858, Viana do Castelo

Recebido: 11/05/2017 | Aceite: 25/11/2017

o objetivo de alertar para a existência desta entidade e para a necessidade de elevada suspeição diagnóstica.

Caso Clínico

Adolescente do sexo feminino, 13 anos, saudável, admitida no serviço de urgência por início súbito de dificuldade respiratória após inalação de desodorizante em aerossol no balneário escolar. Objetivados rinoconjuntivite, estridor laríngeo, sibilância, estabilidade hemodinâmica e normoxemia, foram colocadas como hipóteses de diagnóstico, anafilaxia *versus* crise asmática induzidas por irritante inalante. O tratamento instituído foi adrenalina e salbutamol em nebulização e metilprednisolona endovenosa, com regressão progressiva dos sintomas. A radiografia torácica não evidenciou alterações pleuroparenquimatosas.

Cerca de sete e oito meses depois apresentou mais dois episódios, no mesmo contexto de exposição, que revertem com a terapêutica descrita anteriormente. Observada em consulta de imunologia, foram colocadas como hipóteses de diagnóstico anafilaxia de repetição a irritante inalante e asma. Foi recomendado dispositivo auto-injetável de adrenalina, adrenalina e salbutamol inalados na crise e evicção de irritantes inalantes.

Um mês após a consulta apresentou um quarto episódio após exposição a odor a detergente ao passar em frente duma lavandaria, sem melhoria com autoadministração de adrenalina. Na urgência apresentava estridor laríngeo e sibilância com saturação periférica de oxigénio (SpO₂) de 100% em ar ambiente, quadro este que reverteu com nebulização de adrenalina. A laringoscopia realizada cerca de 60 minutos após a crise não visualizou nenhuma alteração funcional ou estrutural da laringe. Pela possibilidade de asma induzida por agente irritante inalante foi proposto tratamento com furoato de mometasona (inalação diária de 400 µg).

Foram realizados os seguintes exames auxiliares de diagnóstico:

- Tomografia computadorizada cervicotorácica, sem visualização de alterações, nomeadamente nos espaços supra e infra-hioideu.
- Prova funcional respiratória, com volumes e débitos globais, relação volume expiratório forçado no primeiro segundo / capacidade vital forçada (FEV1/FVC) e curva de débito-volume normais.
- Prova de broncodilatação negativa.
- Prova de provocação com metacolina positiva, tendo manifestado estridor inspiratório que reverteu após nebulização com adrenalina.
- Testes cutâneos e Phadiatop® inalante negativos.

Apesar de todos os esforços de evicção, a adolescente manteve episódios recorrentes de estridor após contacto com desodorizantes, que revertiam com nebulização de adrenalina. Discutido o caso clínico em reunião multidisciplinar de otorrinolaringologia, imunologia e pediatria, foi colocada a hipótese de adução paradoxal das pregas vocais e programada laringoscopia com prova de provocação. Neste exame observou-se mobilidade das pregas vocais conservada e simétrica, sem lesões ou sinais inflamatórios (Fig. 1). No entanto, na prova de provocação com inalação de desodorizante, observou-se adução das pregas vocais durante a inspiração, confirmando o diagnóstico (Fig. 2).

A adolescente foi encaminhada para treino vocal e reeducação respiratória em terapia da fala, numa frequência de duas sessões semanais durante três meses.



Figura 1. Nasofibrosopia em condições basais, com pregas vocais simétricas, em abdução e sem lesões.



Figura 2. Nasofibrosopia com prova de provocação, demonstrando movimento paradoxal (adução) das pregas vocais durante a inspiração.

Decorridos dois anos desde então, apresenta-se assintomática mesmo após contacto regular com desodorizantes.

Discussão

A real prevalência da APPV é desconhecida. Uma revisão da literatura que incluiu 1530 crianças e adultos até 82 anos de idade com disfunção das pregas vocais concluiu que 35% dos casos ocorriam em crianças e adolescentes com idade média de 14 anos.² Os dados na literatura apontam para uma prevalência de 2,5% em doentes com diagnóstico de asma até 22% em doentes com admissões recorrentes no serviço de urgência por dispneia.⁴ A prevalência de disfunção das pregas vocais em adolescentes é muito variável, de 8% a 27%.⁷

O primeiro caso descrito na literatura data de 1842, num paciente com *croup* "histórico". A situação foi denominada de estridor de Munchausen.⁸ Considerada uma patologia psiquiátrica durante muitos anos, a literatura recente refere uma etiologia multifatorial, incluindo fatores fisiológicos, psicológicos e neurogênicos.¹⁻⁴ Vários fatores desencadeantes foram identificados, tais como infeções das vias aéreas superiores, refluxo gastroesofágico, inalação de irritante e exercício físico.^{1,2,4,7} Nesta adolescente o fator desencadeante *major* identificado foi a inalação de desodorizante. No entanto, os autores admitem que a ansiedade gerada pela necessidade de evicção e frequência das recorrências tenha sido um cofator adicional.

O mecanismo fisiopatológico responsável pela APPV não é conhecido com exatidão. A literatura refere a existência de uma diminuição do limiar do reflexo protetor de encerramento da glote, sendo sugeridas diversas teorias para este fenómeno, nomeadamente hiperreatividade laríngea, alteração da regulação do sistema nervoso autónomo e estimulação direta da via aérea.^{3,4,7,9}

A obstrução variável ao fluxo de ar manifesta-se por dispneia, estridor laríngeo, sensação de aperto orofaríngeo, tosse e/ou toracalgia. Apesar de não serem frequentes, a disфонia e rouquidão podem estar presentes. A APPV é reconhecida como causa de sintomas respiratórios em crianças com diagnóstico de asma refratária originando, frequentemente, instituição de terapêutica farmacológica excessiva.^{1,2,4,6,7,10} A coexistência de asma e APPV é descrita por diversos autores, variando entre 35% a 56%, o que dificulta o diagnóstico.^{3,4,6} No presente caso, a adolescente não tem antecedentes de patologia respiratória e, perante o diagnóstico de asma induzida por irritante inalante, fez ao longo de um ano várias medicações comumente usadas nesta patolo-

gia, tais como corticoterapia inalada e broncodilatador. Em média, o período de tempo desde o início do quadro até o diagnóstico de APPV é de pelo menos quatro anos.⁴ Nesta adolescente o diagnóstico foi feito um ano e três meses após o início da sintomatologia.

A suspeição diagnóstica baseia-se na anamnese e exame objetivo em que é importante apurar a existência de início e término súbitos, curta duração e normoxemia apesar dos sinais de dificuldade respiratória.^{2,4,6}

Durante a crise, a radiografia do tórax é normal. A espirometria pode ajudar no diagnóstico diferencial, uma vez que na APPV, durante a inspiração, observa-se uma atenuação da curva débito-volume.^{1,7,10} Esta doente realizou provas funcionais respiratórias nos períodos entre crises, tendo sido normais. A prova de provocação com metacolina foi interpretada como positiva. No entanto não desencadeou broncospasmo, mas sim estridor laríngeo. Tal como descrito na literatura, alguns doentes com APPV apresentam movimento inadequado das pregas vocais na inspiração e/ou expiração durante a prova com metacolina, uma vez que esta substância atua como irritante inalante.^{3,10} Deste modo, a realização de uma laringoscopia após uma prova de provocação com metacolina positiva é importante na distinção diagnóstica entre asma e APPV.

O diagnóstico diferencial inclui diversas patologias, tais como paresia bilateral das pregas vocais, estenose / obstrução traqueal, doença neuromuscular, asma, malformação congénita, estenose / massa subglótica, tumor laríngeo, crise de pânico, aspiração de corpo estranho e obstrução brônquica.³

O diagnóstico definitivo requer a realização de laringoscopia com visualização da adução inspiratória dos dois terços anteriores das pregas vocais e uma fenda posterior em forma de diamante.^{1,6,7,10} Nesta adolescente estas alterações ficaram documentadas durante a prova de provocação com inalação de desodorizante.

A abordagem terapêutica é multidisciplinar e essencialmente não farmacológica, sendo que cerca de 95% dos doentes recuperam com terapia da fala e apoio psicológico. A terapia da fala consiste na realização de exercícios de aumento de resistência vocal e de relaxamento laríngeo bem como treino de respiração predominantemente diafragmática, visando um relaxamento indireto da musculatura laríngea e consequente abertura coordenada das pregas vocais durante a respiração.^{3,9,10} Esta terapêutica foi bem-sucedida nesta adolescente. Após dois anos de seguimento, a doente está assintomática e sem necessidade de evicção de irritante inalante.

No tratamento da crise alguns autores referem o benefício da administração de Heliox®. Graças à sua baixa densidade, há uma redução da turbulência na via área

com diminuição do estridor e esforço respiratório e relaxamento das pregas vocais.^{3,10} Apesar da APPV ser na maioria dos casos uma patologia com clínica ligeira / moderada, existem casos relatados de necessidade de injeção de toxina botulínica e de traqueostomia.^{2-4,7,10}

Nesta doente, as crises resolviam com adrenalina nebulizada. Apesar dos autores não encontrarem na literatura nenhuma associação entre adrenalina nebulizada e APPV, são de opinião de que os benefícios tenham advindo do efeito adrenérgico vasoconstritor, com diminuição do edema laríngeo, e relaxante do músculo liso da via aérea.¹⁰ Por outro lado, a forma de administração poderá ter facilitado a regressão dos sintomas, uma vez que a nebulização exige uma respiração calma, profunda e uniforme.³

Este caso clínico é um exemplo de APPV isolada. A evolução clínica é favorável, no entanto, o prognóstico a longo prazo permanece incerto. Apesar das dificuldades inerentes ao diagnóstico, devemos estar alerta para esta entidade, sobretudo no doente com asma refratária.

O QUE ESTE ESTUDO TRAZ DE NOVO

- A adução paradoxal das cordas vocais deve ser tida em conta no diagnóstico diferencial da criança e do adolescente admitidos no serviço de urgência por dificuldade respiratória.
- Analisando as dificuldades e peculiaridades inerentes ao diagnóstico, esta entidade é certamente subdiagnosticada.
- Esta entidade deve ser equacionada no doente com asma de difícil controlo, uma vez que mimetiza a sintomatologia asmática ou que coexiste com asma.
- O atraso no diagnóstico de adução paradoxal das cordas vocais cursa com medicação farmacológica excessiva e muitas vezes desnecessária.

Conflitos de Interesse

Os autores declaram a inexistência de conflitos de interesse na realização do presente trabalho.

Fontes de Financiamento

Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo.

Proteção de Pessoas e Animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estavam de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos responsáveis da Comissão de Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Confidencialidade dos Dados

Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de doentes.

Apresentações e Prémios

Apresentado como comunicação oral no 1º Congresso Internacional da Criança e Adolescente. Porto, 2017.

Referências

1. Hatzelis V, Murry T. Paradoxical vocal fold motion: Respiratory retraining to manage long-term symptoms. *J Soc Bras Fonoaudiol* 2012;24:80-5.
2. Kenn K, Balkissoon R. Vocal cord dysfunction: What do we know? *Eur Respir J* 2011;37:194-200.
3. Hoyte FC. Vocal cord dysfunction. *Immunol Allergy Clin N Am* 2013;33:1-22.
4. Denipah N, Dominguez CM, Kraai EP, Kraai TL, Leos P, Braude D. Acute management of paradoxical vocal fold motion (vocal cord dysfunction). *Ann Emerg Med* 2017;69:18-23.
5. Marcinow AM, Thompson J, Forrest LA, de Silva BW. Irritant-induced paradoxical vocal fold motion disorder: Diagnosis and management. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2015;153:996-1000.
6. Franca MC. Differential diagnosis in paradoxical vocal fold movement (PVFM): An interdisciplinary task. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2014;78:2169-73.
7. Lima R, Carvalho A. Disfunção das cordas vocais simulando asma brônquica. *Rev Port Imunoalergol* 2009;17:75-80.
8. Patterson R, Schatz M, Horton M. Munchausen's stridor: Non-organic laryngeal obstruction. *Clin Allergy* 1974;4:307-10.
9. Patel RR, Venediktov R, Schooling T, Wang B. Evidence-based systematic review: Effects of speech-language pathology treatment for individuals with paradoxical vocal fold motion. *Am J Speech Lang Pathol* 2015;24:566-84.
10. Ibrahim WH, Gheriani HA, Almohamed AA, Raza T. Paradoxical vocal cord motion disorder: Past, present and future. *Postgrad Med J* 2007;83:164-72.
11. Deckert J, Deckert L. Vocal cord dysfunction. *Am Fam Physician* 2010;81:156-9.
12. Seaberg RM, Allegro J, Friedman JN, Campisi P. The importance of recognizing paradoxical vocal fold dysfunction: A case report of a 13-year-old girl presenting with stridor. *Paediatr Child Health* 2008;13:611-4.