

Síndrome de opérculo torácico. Alivio de dolor en paciente pediátrico a propósito de un caso

Case report: Thoracic operculum syndrome.
Pain relief in pediatric patients

Pedro Quishpe Pila¹, Andrea Pico Aguilar¹

ABSTRACT

Introduction: Also known as thoracobrachial gyrus syndrome, it is considered as a heterogeneous and potentially dysfunctional group of syndromes related to extrinsic compression of neurovascular structures, causing a variety of symptoms that vary according to the degree of compression and structure affected. **Clinical case:** We present the case of a female patient of 12 years, admitted to hospitalization due to edema of right upper extremity of slow progression to be incapacitating, associated pain in shoulder and adjacent components coinciding with thoracic operculum syndrome, in this history venous thrombosis or lymphangiomas have been ruled out; we are consulted for pain that does not yield to the administration of usual analgesics. **Discussion:** There have been described among the analgesic possibilities, plexus blocks, there is little evidence, its use is not limited in pediatrics, the management for pain reduction, in our case it was made with opioid analgesics and echo guided brachial plexus block, decreasing the severity of pain on a more tolerated scale by the patient, until definitive surgical treatment. **Conclusions:** The analgesic management with opioid turns out to be safe in the pediatric population and regional anesthesia with analgesic blocks has been very useful in patients with severe pain reluctant analgesics.

Key words:

Pain in pediatrics,
thoracic outlet
syndrome,
brachial plexus blockage,
opioids

RESUMEN

Introducción: También conocido como síndrome de desfiladero toracobraquial, se lo considera como un grupo heterogéneo y potencialmente disfuncional de síndromes relacionados con compresión extrínseca de estructuras neuro-

Palabras clave:

Dolor en pediatría,
síndrome opérculo
torácico,
bloqueo plexo braquial,
opioides

¹ Residente del Postgrado de Anestesiología de la Universidad San Francisco de Quito. Hospital Carlos Andrade Marín.

Fecha de recepción: 19 de enero de 2019

Fecha de aceptación: 12 de febrero de 2019

ORCID

<https://orcid.org/0000-0002-6406-6987>

Correspondencia:

Email: pedro_quishpe@yahoo.es/pedroq409@gmail.com

vasculares, ocasiona una variedad de sintomatología que varía según grado de compresión y estructura afectada. **Caso clínico:** Se presenta el caso de una paciente femenina de 12 años, ingresada a hospitalización por presentar edema de extremidad superior derecha de lenta progresión hasta ser incapacitante, asociado dolor en hombro y componentes aledaños coincidentes con síndrome de opérculo torácico, en dicho historial se ha descartado trombosis venosa o linfagiomias; se nos interconsulta por dolor que no cede a la administración de analgésicos habituales. **Discusión:** Se han descrito entre las posibilidades analgésicas, bloqueos de plexo, existe poca evidencia, su uso no se ve limitado en pediatría, el manejo para disminución de dolor, en nuestro caso se realizó a base de analgésicos opioides y bloqueo de plexo braquial ecoguiado, disminuyendo la severidad del dolor a escala más tolerada por el paciente, hasta tratamiento quirúrgico definitivo. **Conclusiones:** El manejo analgésico con opioide resulta ser seguro en población pediátrica y anestesia regional con bloqueos analgésicos se ha visto de mucha utilidad en paciente con dolor severo reñentes analgésicos habituales.

Introducción

El síndrome del opérculo torácico (SOT), también conocido como síndrome de desfiladero toracobraquial, tiene baja incidencia en población pediátrica, es una condición causada por la compresión de las estructuras neurovasculares[1]-[3]. El prensado produce secundariamente estenosis, de las estructuras anatómicas que emergen del tórax, hacia la extremidad superior, producen dolor, en ocasiones de difícil manejo[4]-[6]. El SOT puede ser dividido, dependiendo el tipo de compresión: neurogénico, raíces del plexo braquial, 95%, venoso, vena subclavia, 4-5% y arterial, arteria subclavia, 1%, suelen existir anomalías que implican 2 o 3 variantes[3],[7],[8]. Las anomalías anatómicas, trauma o movimientos repetitivos, pueden ocasionar un SOT en población pediátrica, además del síndrome de Paget Schroetter o síndrome de McCleery, más frecuentemente asociado a pediatría. Sin embargo, las causas son poco conocidas, debido a la baja prevalencia en esta población[1],[9].

Dada la rareza del diagnóstico en pacientes jóvenes y pediátricos, probablemente este trastorno esté infradiagnosticado e infratratado. Al considerar la incapacidad que produce, debido al dolor, la necesidad de un tratamiento eficaz es necesaria[10]-[12].

Vercello et al., presenta una serie de 8 casos en donde el principal síntoma, fue el dolor y la incapacidad que produce esta patología, el manejo de dolor respondió, aines y fisioterapia, finalmente resolución quirúrgica[2]. Por lo que el dolor, es una de las principales alteraciones en SOT, actualmente, se conoce que la población pediátrica es capaz de recordar las

experiencias dolorosas[2].

El manejo de dolor en nuestro caso se basó en las guías pertenecientes a la Organización Mundial de la Salud (OMS), esta indica el medicamento adecuado de acuerdo a la intensidad del dolor. Dolor intenso severo, que incapacita la actividad diaria, responde a opioides fuertes y bloqueos analgésicos[11],[13],[14].

El bloqueo de plexo braquial, con objetivo analgésico es una opción en casos de SOT, en especial cuando se han agotado las otras opciones analgésicas[9],[15]. El conocimiento de sonoanatomía y manejo de ecografía son herramientas necesarias para un anestesiólogo[1],[9].

Caso clínico

Paciente femenina de 12 años, presenta dolor en extremidad superior derecha de difícil manejo. En esta ocasión consulta por un cuadro de dos meses de evolución, acompañado de parestias, frialdad y disminución de fuerza, su actividad consiste en educación secundaria, sin elevar cargas pesadas. Madre de paciente niega antecedentes personales, quirúrgicos o alergias. Uso continuo de AINES, función renal tasa de filtración glomerular (TFG) 70,1 (ml/min/1,73 m²), sospecha de síndrome de Paget Schroetter.

Examen físico: cianosis distal, pulsos filantes, extremidad fría al tacto, edema que deja fovea, retraso de llenado capilar > 3 seg.

Eco doppler, negativo para trombos, flujos disminuidos.

Tomografía y resonancia magnética, compresión

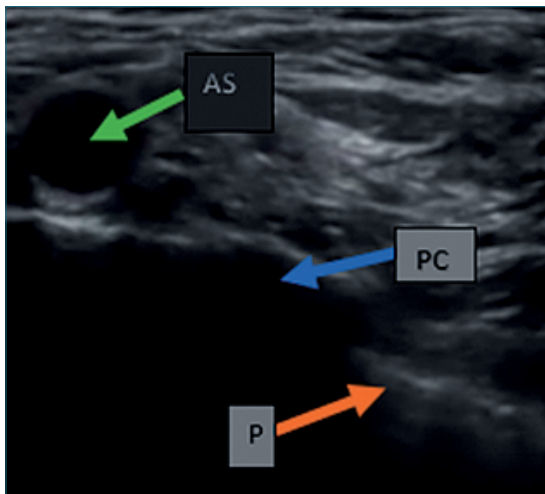


Figura 1. Imagen ecográfica de plexo braquial (apréciese arteria subclavia flecha verde (AS), flecha tomate pleura (P), primera costilla flecha azul (PC) imagen obtenida por autores.

de paquete vasculonervioso a nivel de la primera costilla, aumento de tejido circundante a plexo braquial. (Figuras 4 y 5).

Tratamiento inicial: corticoides y analgésicos no esteroidales, vitamina B, relajantes musculares, fisioterapia. Dolor no cede. Se nos interconsulta.

Valoramos paciente algica, test de Selmonosky (consiste en rotación externa y elevación de extremidad), compatible con presión de paquete vasculonervioso, desencadena dolor, por escala analógica visual (EVA) 10/10, llanto fácil, angustia, desesperación.

La toma y decisión analgésica se basa en la efectividad de medicamento, efectos adversos, posibilidad de reversión, perfil hepático, función renal y EVA. Inicialmente decidimos, analgesia con opioide, siguiendo la escala de manejo de dolor de la OMS.

Catalogamos dolor nociceptivo profundo y superficial referido a tejidos, producido por isquemia de extremidad por flujos bajos. Coincide con compresión vasculonerviosa.

Elegimos buprenorfina; buena afinidad, efectos analgésicos prolongados, margen de seguridad adecuado, efectos secundarios (bradicardia y depresión respiratoria), medidas adecuadas para reversión; titulación intravenosa carga de buprenorfina 5 mcg/kg (150 mcg diluidos en 10 cc de solución salina 0,9%). Respuesta inicial tolerancia al dolor, necesidad de nueva carga hasta 300 mcg. Respuesta: disminución de dolor y ansiedad. Añadimos cuarto de parche del mismo medicamento, evitamos infusión continua, por



Figura 2. Bloqueo de plexo braquial ecoguiado, apréciese las relaciones anatómicas alteradas, se observa disminución de calibre de arteria subclavia. Imagen obtenida por autores.

posibilidad de adicción. Disminución de dolor, a escala EVA 6/10, permite descansar durante la noche.

Persistencia de dolor, EVA 7/10, tomamos en cuenta bloqueos analgésicos, como coadyuvante al tratamiento con opioide, se informa a la madre los beneficios y complicaciones, obtenemos consentimiento informado. Indicamos posibilidad de colocar catéter para rescate analgésico, madre y paciente rehúsan.

Decidimos bloqueo analgésico de plexo braquial.

Presenta tres variantes de abordaje: supraclavicular, infraclavicular e interescalénico.

Se realiza un rastreo ecográfico para decir abordaje, se encuentra distorsión de anatomía, edema y pocas referencias anatómicas en accesos infraclavicular e interescalénico, abordaje supraclavicular con mejor referencias anatómicas (Figura 1).

Se realiza, abordaje ecoguiado (Figura 2), monitoreo de Sociedad Americana de Anestesiología, sedación (fentanilo 1 mg/kg y midazolam 0,05 mg/kg), escala de Ramsay 3/6, transductor en la fosa supraclavicular en dirección caudal identificación (primera costilla, arteria subclavia y pleura) (Figura 3), visualizamos a la arteria subclavia, hipoecoica y pulsátil, a este nivel, el plexo braquial como un racimo de uvas, colocamos bolsillo de anestésico local (bupivacaina sin epinefrina 0,25%), junto a plexo 12,5 ml total (Figura 3). No existió complicación en procedimiento. Dolor aplacado a EVA 3/6.

Mantenemos esquema de buprenorfina en parche con recambio cada 72 horas, paciente evoluciona satisfactoriamente, con dolor controlado con opioide (parches de buprenorfina), hasta proceder quirúrgico, el cual se lo realiza sin mayores contratiempos. Cirugía exitosa llevaron a la resolución del dolor, con retiro progresivo de parche, hasta su total remisión.

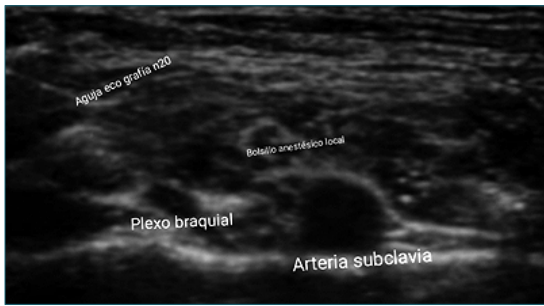


Figura 3. Bloqueo de plexo braquial ecoguiado. Bolsillo analgésico apréciase las relaciones anatómicas alteradas. Imagen obtenida por autores.

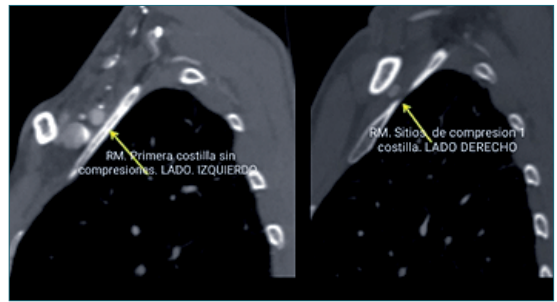


Figura 4. Resonancia magnética, imagen T1, compresión de zonas anatómicas a nivel de primera costilla. Diferencias de lado derecho e izquierdo. Imagen obtenida por autores.

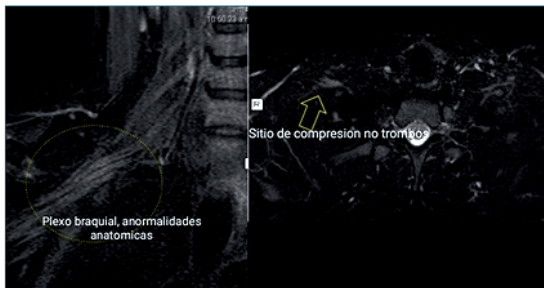


Figura 5. Resonancia magnética, imagen T2, apréciase compresión de zonas anatómicas a nivel de primera costilla. Anomalías anatómicas con aumento de tejido en plexo braquial. Imagen obtenida por autores.

Tabla 1. Tipos de SOT dividido por tipo de compresión	
Vascular (5 o 6%)	Arterial o venoso subclavio, se presenta edema y extremidad fría
Neurogénica (95%)	Compresión de raíces del plexo braquial. Presentan dolor, parestesias

Tabla elaborada por autores.

Discusión

El síndrome de opérculo torácico, en pacientes pediátricos, es una entidad poco conocida y en ocasiones infradiagnosticado, pueden estar relacionados con varias entidades, tales como, anomalías anatómicas, trauma, movimientos repetitivos o presencia de algunos síndromes[12],[16]; muy recientemente Rehemutula et al., indica como posibilidad infección aguda o crónica de los ganglios linfáticos cervicales, que posteriormente desarrollan inflamación cervical[12].

Al igual que con los adultos el SOT, se caracteriza por la compresión de estructuras neurovasculares a nivel del cuello, se divide en neurogénicos, venosos o arteriales, por lo tanto, el dolor no es bien definido[17]-[19], se lo cataloga según la estructura comprimida como se describe en la Tabla 1.

Todas las entidades desencadenan dolor, hay que tomar en cuenta, las estrecheces anatómicas del SOT[20],[21], a nivel de espacio costoclavicular, retropectoral menor o subcoracoideo; mejoran con anti-

inflamatorios, analgésicos o terapia física. Compresiones a nivel del triángulo interescalénico, desencadena dolor de difícil manejo, en estos casos, la necesidad de bloqueos analgésicos es requerida[20],[21].

El tratamiento del dolor, con antiinflamatorios, analgésicos, relajantes musculares y terapia física, tiene mejoría de 90% de los casos, el 10% presenta renuencia a métodos habituales[2],[17],[20]; aquí la población pediátrica tiene su lugar, según Vittinghoff et al., el poco efecto en manejo de dolor se debe a moduladores o productores de dolor, las citoquinas inflamatorias, promueven la proliferación de tejido conectivo periférico que comprime el plexo braquial[2],[6].

En nuestro caso el manejo de dolor se basó en el tratamiento farmacológico, tomando en cuenta la escalera analgésica de la OMS. El dolor que presenta nuestra paciente, es un dolor intenso severo, los opioides potentes y bloqueos analgésicos son necesarios. Aceptados en pediatría, con efectos adversos, que tienen que ser monitorizados[3],[19].

Existen pocos estudios acerca de bloqueos analgésicos, Simic et al., realizó bloqueos en nervios cervicales, para tratamiento de dolor en casos de renuencia, después del bloqueo, la fuerza muscular del hombro, codo y mano aumentaron significativamente, la capacidad de los pacientes para reanudar las actividades restringidas por la enfermedad mejoró notabilmen-

te[15]. La evidencia sugiere la realización de bloqueos bajo visión directa con ecografía, en casos como el de SOT, es necesario un rastreo previo y abordaje del plexo en donde la anatomía no haya sufrido mucha variación[1],[9].

La decisión analgésica se basa en la efectividad de medicamento, efectos adversos, posibilidad de reversión, perfil hepático, función renal e intensidad de dolor. Los opioides se han usado en pediatría con seguridad[14]. La decisión del uso de buprenorfina se basó en el tipo de dolor. Se ha visto un buen efecto del medicamento, cuando el dolor es desencadenado por isquemia[22]. No hay suficiente evidencia que justifique el uso en pediatría, sin embargo, estudios en mayores de 16 años demuestran seguridad[22]. En nuestro caso no se evidenció alteraciones en la función renal, adicción o alteraciones hemodinámicas.

Conclusiones

El síndrome de opérculo torácico, particularmente en pacientes pediátricos, es una entidad poco definida, la característica es el dolor, depende de la estenosis producida por las estructuras circundantes al paquete vasculonervioso.

El empleo de sustancias analgésicas potentes en edad pediátrica (fármacos opioides y sustancias con propiedades anestésicas) deberá ser evaluado y de ser necesaria su utilización, tienen que ser administradas y manipuladas por personal hospitalario experimentado en su uso.

El bloqueo analgésico de plexo braquial en casos de dolor severo, como en el opérculo torácico es útil y una gran herramienta de tratamiento, tiene que ser evaluado, y siempre usar modelos analgésicos convencionales los cuales ya han sido ampliamente estudiados.

Referencias

1. Griffith JF. Ultrasound of the Brachial Plexus. *Semin Musculoskelet Radiol.* 2018 Jul;22(3):323–33. <https://doi.org/10.1055/s-0038-1645862> PMID:29791960
2. Vercellio G, Baraldini V, Gatti C, Coletti M, Cipolat L. Thoracic outlet syndrome in paediatrics: clinical presentation, surgical treatment, and outcome in a series of eight children. *J Pediatr Surg.* 2003 Jan;38(1):58–61. <https://doi.org/10.1053/jpsu.2003.50010> PMID:12592619
3. Zhang W, Pei Y, Liu K, Tan J, Ma J, Zhao J. Thoracic outlet syndrome (TOS): A case report of a rare complication after Nuss procedure for pectus excavatum. *Medicine (Baltimore).* 2018 Sep;97(36):e11846. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000011846> PMID:30200069
4. Braun RM, Shah KN, Rechnic M, Doehr S, Woods N. Quantitative Assessment of Scalene Muscle Block for the Diagnosis of Suspected Thoracic Outlet Syndrome. *J Hand Surg Am.* 2015 Nov;40(11):2255–61. <https://doi.org/10.1016/j.jhsa.2015.08.015> PMID:26429586
5. Kalava A, Pribish AM. T1 Paravertebral Catheter for Postoperative Pain Management After First Rib Resection for Venous Thoracic Outlet Syndrome: A Case Report. *A A Pract.* 2018 Jul;11(1):1–3. <https://doi.org/10.1213/XAA.0000000000000698> PMID:29634572
6. Carpenetti PE, Grosel JM. Thoracic outlet syndrome presenting with subclavian vein thrombosis. *JAAPA.* 2018 Feb;31(2):1–4. <https://doi.org/10.1097/01.JAA.0000529778.85059.ff> PMID:29369936
7. Klaassen Z, Sorenson E, Tubbs RS, Arya R, Meloy P, Shah R, et al. Thoracic outlet syndrome: a neurological and vascular disorder. *Clin Anat.* 2014 Jul;27(5):724–32. <https://doi.org/10.1002/ca.22271> PMID:23716186
8. Laulan J, Fouquet B, Rodaix C, Jauffret P, Roquelaure Y, Descatha A. Thoracic outlet syndrome: definition, aetiological factors, diagnosis, management and occupational impact. *J Occup Rehabil.* 2011 Sep;21(3):366–73. <https://doi.org/10.1007/s10926-010-9278-9> PMID:21193950
9. Lapegue F, Faruch-Bilfeld M, Demondion X, Apredoaei C, Bayol MA, Artico H, et al. Ultrasonography of the brachial plexus, normal appearance and practical applications. *Diagn Interv Imaging.* 2014 Mar;95(3):259–75. <https://doi.org/10.1016/j.diii.2014.01.020> PMID:24603038
10. Balderman J, Holzem K, Field BJ, Bottros MM, Abuirqeba AA, Vemuri C, et al. Associations between clinical diagnostic criteria and pretreatment patient-reported outcomes measures in a prospective observational cohort of patients with neurogenic thoracic outlet syndrome. *J Vasc Surg.* 2017 Aug;66(2):533–544.e2. <https://doi.org/10.1016/j.jvas.2017.05.001>

- org/10.1016/j.jvs.2017.03.419
PMID:28735950
11. Qaja E, Honari S, Rhee R. Arterial thoracic outlet syndrome secondary to hypertrophy of the anterior scalene muscle. *J Surg Case Rep.* 2017 Aug;2017(8):rjx158. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjx158> PMID:28928918
 12. Rehemutula A, Zhang L, Chen L, Chen D, Gu Y. Managing pediatric thoracic outlet syndrome. *Ital J Pediatr.* 2015 Mar;41(1):22. <https://doi.org/10.1186/s13052-015-0128-4> PMID:25881097
 13. Dintaman J, Watson C, Fox CJ, Hoover N, Roberts S, Gillespie DL. Case of adolescent with Paget-Schroetter syndrome and underlying thrombophilia due to an elevated lipoprotein (A). *Pediatr Blood Cancer.* 2007 Dec;49(7):1036–8. <https://doi.org/10.1002/pbc.20790> PMID:16496286
 14. Likes KC, Orlando MS, Salditch Q, Mirza S, Cohen A, Reifsnnyder T, et al. Lessons Learned in the Surgical Treatment of Neurogenic Thoracic Outlet Syndrome Over 10 Years. *Vasc Endovascular Surg.* 2015 Jan-Feb;49(1-2):8–11. <https://doi.org/10.1177/1538574415583850> PMID:25916629
 15. Simic D, Stevic M, Stankovic Z, Simic I, Ducic S, Petrov I, et al. The Safety and Efficacy of the Continuous Peripheral Nerve Block in Postoperative Analgesia of Pediatric Patients. *Front Med (Lausanne).* 2018 Mar;5:57. <https://doi.org/10.3389/fmed.2018.00057> PMID:29594120
 16. Franklin GM. Work-Related Neurogenic Thoracic Outlet Syndrome: diagnosis and Treatment. *Phys Med Rehabil Clin N Am.* 2015 Aug;26(3):551–61. <https://doi.org/10.1016/j.pmr.2015.04.004> PMID:26231965
 17. Hawkins AT, Schaumeier MJ, Smith AD, de Vos MS, Ho KJ, Semel ME, et al. Concurrent venography during first rib resection and scalenectomy for venous thoracic outlet syndrome is safe and efficient. *J Vasc Surg Venous Lymphat Disord.* 2015 Jul;3(3):290–4. <https://doi.org/10.1016/j.jvsv.2014.09.010> PMID:26992308
 18. Dumonceau JM, Devière J. Novel treatment options for Bouveret's syndrome: a comprehensive review of 61 cases of successful endoscopic treatment. *Expert Rev Gastroenterol Hepatol.* 2016 Nov;10(11):1245–55. <https://doi.org/10.1080/17474124.2016.1241142> PMID:27677937
 19. Abdel Ghany W, Nada MA, Toubar AF, Desoky AE, Ibrahim H, Nassef MA, et al. Modified Interscalene Approach for Resection of Symptomatic Cervical Rib: Anatomic Review and Clinical Study. *World Neurosurg.* 2017 Feb;98:124–31. <https://doi.org/10.1016/j.wneu.2016.10.113> PMID:27989967
 20. Vittinghoff M, Lönnqvist PA, Mossetti V, Heschl S, Simic D, Colovic V, et al. Postoperative pain management in children: Guidance from the pain committee of the European Society for Paediatric Anaesthesiology (ESPA Pain Management Ladder Initiative). *Paediatr Anaesth.* 2018 Jun;28(6):493–506. <https://doi.org/10.1111/pan.13373> PMID:29635764
 21. Dep A, Concannon E, Mc Hugh SM, Burke P. Paget-Schrotter syndrome and complications of management. *BMJ Case Rep.* 2013 Jul;2013 jul12 1:2013. <https://doi.org/10.1136/bcr-2013-008858> PMID:23853011
 22. Aurilio C, Pace MC, Passavanti MB, Paladini A, Maisto M, Iannotti M, et al. Treatment of ischemic pain in patients suffering from peripheral vasculopathy with transdermal buprenorphine plus epidural morphine with ropivacaine vs epidural morphine with ropivacaine. *Pain Pract.* 2009 Mar-Apr;9(2):105–14. <https://doi.org/10.1111/j.1533-2500.2008.00237.x> PMID:19019049