



Since January 2020 Elsevier has created a COVID-19 resource centre with free information in English and Mandarin on the novel coronavirus COVID-19. The COVID-19 resource centre is hosted on Elsevier Connect, the company's public news and information website.

Elsevier hereby grants permission to make all its COVID-19-related research that is available on the COVID-19 resource centre - including this research content - immediately available in PubMed Central and other publicly funded repositories, such as the WHO COVID database with rights for unrestricted research re-use and analyses in any form or by any means with acknowledgement of the original source. These permissions are granted for free by Elsevier for as long as the COVID-19 resource centre remains active.

Carta científica

Síndrome de Tapia en el contexto de distrés respiratorio por SARS-CoV-2



Tapia Syndrome in the Context of Respiratory Distress due to SARS-CoV-2

Estimado Editor:

El alto número de pacientes que ha precisado de ingreso en Unidades de Cuidados Intensivos (UCI) debido a la infección por SARS-CoV-2, junto con la necesidad de intubación orotraqueal, ventilación mecánica y sesiones de pronación, ha puesto de manifiesto síndromes excepcionales descritos previamente. Este es el caso del síndrome de Tapia, descrito por primera vez en 1904 a raíz de herida por asta de toro¹, caracterizándose por la afectación de los nervios vago (X) e hipogloso (XII) y que ha sido descrito como consecuencia del manejo invasivo de la vía aérea.

Presentamos el caso de un varón de 50 años con un ingreso en la UCI por síndrome de distrés respiratorio (SDRA) secundario a neumonía por SARS-CoV-2. Como antecedentes destacaba diabetes mellitus tipo II, otitis media aguda con mastoiditis, parálisis facial periférica izquierda sin secuelas y síndrome de Tolosa-Hunt. Tras ventilación mecánica prolongada se realizó traqueostomía a los 21 días de la intubación. Durante su estancia en UCI, presentó una tromboflebitis del seno cavernoso^{2,3} a raíz de una sinusitis del seno esfenoidal izquierdo. El paciente recibió tratamiento corticoideo, antibiótico, anticoagulante y drenaje endoscópico del seno esfenoidal, tras lo cual desapareció la fiebre y los síntomas oculares. El paciente permaneció en UCI 49 días, siendo dado de alta a nuestra Unidad de Cuidados Respiratorios Intermedios (UCRI) para progresar en el destete. A su llegada a la UCRI se objetivó desviación de la lengua hacia la izquierda, disartria y caída del velo del paladar, sin alteración del resto de pares craneales. Presentó problemas de deglución necesitando de nutrición por sonda nasogástrica y mal manejo de secreciones respiratorias. Se realizó una broncoscopia visualizándose parálisis en abducción de la cuerda vocal izquierda. Ante la afectación de pares craneales bajos se contactó con Neurología, detectándose una paresia periférica del hipogloso izquierdo consistente en una caída del velo del paladar izquierdo, motilidad del mentón disminuida ipsilateralmente, reflejo nauseoso conservado y sin alteraciones en la sensibilidad del trigémino (fig. 1). Tras la exploración neurológica y ante el antecedente de intubación prolongada concluyeron que se trataba de un síndrome de Tapia. Nuestro paciente no requirió maniobras de decúbito prono, pero sí intubación orotraqueal. Por tanto, el desencadenante más plausible sería el efecto compresivo del balón del tubo orotraqueal. En nuestro caso no consideramos que el drenaje del seno esfenoidal guarde relación con el síndrome de Tapia dadas las implicaciones anatómicas que conlleva.

A pesar de la rehabilitación fonodeglutoria y haber recibido tratamiento corticoideo durante las primeras semanas, la evolución



Figura 1. Desviación de la lengua por parálisis lingual.

ha sido tórpidas. Actualmente, el paciente presenta buen manejo de secreciones y ha completado el proceso de destete ventilatorio manteniéndose en respiración espontánea con FiO₂ 0,21. Sin embargo, persiste desviación izquierda de la lengua, parálisis de la cuerda vocal izquierda, disfagia y disartria.

El síndrome de Tapia es una entidad infrecuente, siendo complicado calcular su prevalencia e incidencia dado que en la literatura sólo existen reportes de casos o series de casos¹⁻¹¹. Puede tener un origen periférico extracraneal debido a la lesión a nivel cervical del nervio hipogloso y la rama laríngea recurrente del nervio vago, o bien un origen central por lesión bulbar del núcleo ambiguo, el núcleo del nervio hipogloso y el tracto piramidal⁴. La afectación central puede darse por hemorragia, isquemia u otras lesiones^{5,6}. La causa más frecuente de este síndrome es un traumatismo externo a nivel periférico. Habitualmente la lesión ocurre en el espacio laterofaríngeo donde el nervio hipogloso contacta con el ganglio nodoso del nervio vago.

La clínica y la etiología de este síndrome se explica por la localización de los nervios afectados. Ambos pares craneales tienen su origen en el bulbo raquídeo. El nervio vago (X) abandona el cráneo por el foramen yugular junto con los pares craneales IX y XI y el nervio hipogloso lo hace a través del conducto del hipogloso. Una vez atraviesan estas estructuras llegan al espacio laterofaríngeo o retroestiloideo, en el cual el nervio vago formará parte del paquete vasculonervioso del cuello junto con la arteria carótida interna y la vena yugular interna, dando lugar a esta altura al ganglio inferior o nudoso de cuyo borde inferior nace el nervio laríngeo superior. Por su parte, en el espacio laterofaríngeo el nervio hipogloso discurre por la cara anterior de la apófisis transversa de la primera vértebra cervical (C1) descendiendo posterior a la arteria carótida interna. A continuación, cambia de dirección haciéndose más anterior y pasa sobre el hioides para inervar a los músculos de la lengua⁷ (fig. 2).

Hay descritos casos de neuroapraxia de los pares X y XII secundarios al efecto compresivo que ocasiona el balón de intubación en la laringe, así como la flexión excesiva de la cabeza durante los procedimientos anestésicos y las maniobras de decúbito prono^{7,12-14}.

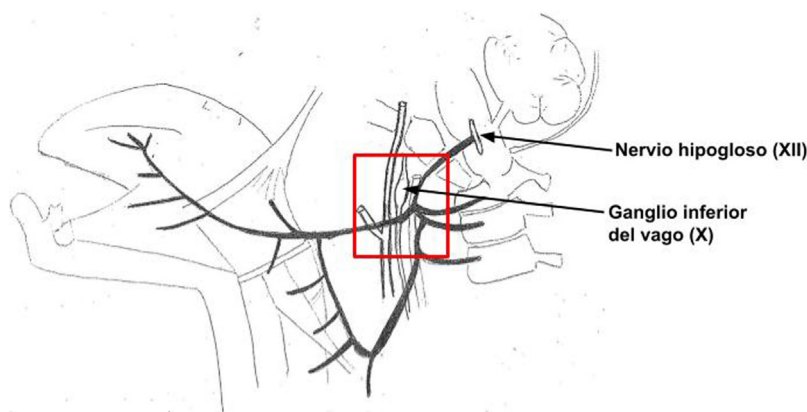


Figura 2. Esquema del trayecto del nervio hipogloso y zona de mayor posibilidad de lesión.

Según Cariati et al.¹³, una exploración física meticulosa y una endoscopia en la que se objeive la parálisis de la cuerda vocal ipsilateral son suficientes para llegar al diagnóstico de síndrome de Tapia, evitando la realización de otras pruebas de imagen¹³. Es fundamental en el tratamiento el inicio precoz de rehabilitación fonodeglutatoria. Aún sin evidencia científica, hay autores que utilizan corticoides durante 10-14 días, así como vitaminas del grupo B durante tres meses⁴.

Puede ser útil la colocación de una sonda para alimentación durante la recuperación de la deglución para disminuir el riesgo de aspiración⁵. Con tratamiento conservador y un tiempo variable de evolución, la recuperación suele ser completa y sin secuelas¹³, lo que apoya un probable origen neuroaprático como mecanismo etiológico.

En cuanto al neurotropismo del SARS-CoV-2 como causa directa del síndrome de Tapia¹⁵⁻¹⁷, es controvertida, y aunque Matschke et al.¹⁸ demostraron su existencia en el sistema nervioso central (SNC), esta hipótesis no está aceptada.

En conclusión, presentamos el caso de un paciente con diagnóstico de síndrome de Tapia grado III¹⁹ probablemente secundario a intubación prolongada por SDRA secundario a infección por SARS-CoV-2.

Consentimiento informado

Los autores confirman que se ha obtenido el consentimiento por escrito de todos los pacientes.

Financiación

El presente estudio carece de financiación.

Conflicto de intereses

Todos los autores declaran no presentar conflicto de intereses.

Bibliografía

- Tapia AG. Un caso de parálisis del lado derecho de la laringe y de la lengua, con parálisis del esternocleidomastoideo y trapecio del mismo lado; acompañado de hemiplejía total temporal del lado izquierdo del cuerpo. *Siglo Med.* 1905;52:211-3.
- Jeong HL, Ho KL, Ji KP, C GC, Dae S. Cavernous sinus syndrome: clinical features and differential diagnosis with MR imaging. *AJR.* 2003;181:583-90. <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.181.2.1810583>.
- Bone I, Hadley D. Syndromes of the orbital fissure, cavernous sinus, cerebello-pontine angle, and skull base. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 2005;76 Suppl III:iii29-38. <http://dx.doi.org/10.1136/jnnp.2005.075259>.
- Sanabria Sanchinel AA, Navarro Pérez MP, Flores Robles BJ, Tejero Juste C. Tapia syndrome plus: A new entity or a variant of Tapia syndrome? *Neurologia.* 2019;34(5):348-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.nrl.2017.05.007>.
- Krasnianski M, Neudecker S, Schlüter A, Krause U, Winterholler M. Central Tapia's syndrome (matador's disease) caused by metastatic hemangiosarcoma. *Neurology.* 2003;61(6):868-9. <http://dx.doi.org/10.1212/01.wnl.0000080370.43712.aa>.
- Al-Sihan M Jr, Schumacher M, Löhle E. Tapia syndrome caused by a vertebral artery dissection. *Ear Nose Throat J.* 2011;90(7):313-4. <http://dx.doi.org/10.1177/014556131109000709>.
- Silva-Hernández L, Gil Rojo C, González García N, Porta-Etessam J. Tapia syndrome following orotracheal intubation: A case report. *Neurologia.* 2020;35(6):421-3. <http://dx.doi.org/10.1016/j.nrl.2018.05.007>.
- Lykoudis EG, Seretis K. Tapia's syndrome: an unexpected but real complication of rhinoplasty: case report and literature review. *Aesthetic Plast Surg.* 2012;36(3):557-9. <http://dx.doi.org/10.1007/s00266-011-9849-y>.
- Nalladaru S, Wessels A, DuPreez L. Tapia's syndrome - a rare complication following cardiac surgery. *Interact Cardiovasc Thorac Surg.* 2012;14(1):131-2. <http://dx.doi.org/10.1093/icvts/ivr056>.
- Decavel P, Petit C, Tatu L. Tapia syndrome at the time of the COVID-19 pandemic: Lower cranial neuropathy following prolonged intubation. *Neurology.* 2020;95(7):312-3. <http://dx.doi.org/10.1212/WNL.0000000000010011>.
- Yavuzer R, Başterzi Y, Aezköse Z, Demir HY, Yilmaz M, Ceylan A. Tapia's syndrome following septorhinoplasty. *Aesthetic Plast Surg.* 2004;28(4):208-11. <http://dx.doi.org/10.1007/s00266-003-3037-7>.
- Cinar SO, Seven H, Cinar U, Turgu S. Isolated bilateral paralysis of the hypoglossal and recurrent laryngeal nerves (Bilateral Tapia's syndrome) after transoral intubation for general anesthesia. *Acta Anaesthesiol Scand.* 2005;49(1):98-9. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1399-6576.2004.00553.x>.
- Cariati P, Cabello A, Galvez P, Lopez DS, Medina BG. Tapia's syndrome: pathogenetic mechanisms, diagnostic management, and proper treatment: a case series. *J Med Case Rep.* 2016;10:23. <http://dx.doi.org/10.1186/s13256-016-0802-1>.
- Gevorgyan A, Nedzelski M. A late recognition of Tapia syndrome: a case report and literature review. *Laryngoscope.* 2013;123:2423-7. <http://dx.doi.org/10.1002/lary.24070>.
- Yatim N, Bonnet N, Wing Tin SN, Cohen Y, Degos B. Persistent bilateral Tapia syndrome following critical COVID-19. *Clin Neurophysiol.* 2021;132(2):505-6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.clinph.2020.12.007>.
- Pezzini A, Padovani A. Lifting the mask on neurological manifestations of COVID-19. *Nat Rev Neurol.* 2020;16(11):636-44. <http://dx.doi.org/10.1038/s41582-020-0398-3>.
- Cardozo AR, Ruiz I, Carrillo DR, Peñacoba P. Síndrome de Tapia y pronación en paciente con Neumonía por COVID-19: a propósito de un caso. *Enferm Infecc Microbiol Clin.* 2021. <http://dx.doi.org/10.1016/j.eimc.2021.06.019>.
- Matschke J, Lütgehetmann M, Hagel C, Sperhake JP, Schröder AS, Edler C, et al. Neuropathology of patients with COVID-19 in Germany: a post-mortem case series. *Lancet Neurol.* 2020;19(11):919-29. [http://dx.doi.org/10.1016/S1474-4422\(20\)30308-2](http://dx.doi.org/10.1016/S1474-4422(20)30308-2).
- Boğa I, Aktas S. Treatment, classification, and review of Tapia syndrome. *J Craniofac Surg.* 2010;21(1):278-80. <http://dx.doi.org/10.1097/SCS.0b013e3181c678f0>.

Lucía Fernández-Presa^{a,b}, Santos Ferrer Espinosa^{a,b},
Jesús Sancho Chinesta^{a,b,*} y Jaime Signes-Costa Miñana^{a,b}

^a Servicio de Neumología. Hospital Clínico Universitario Valencia, Valencia, España

^b Instituto de Investigación Sanitaria INCLIVA, Valencia, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: jesus.sancho@uv.es (J. Sancho Chinesta).