

# Disfunção das cordas vocais simulando asma brônquica

## *Vocal cord dysfunction mimicking bronchial asthma*

Data de recepção / Received in: 30/08/2008

Data de aceitação / Accepted for publication in: 20/11/2008

Rev Port Imunoalergologia 2009; 17 (1): 75-80

Ricardo Lima<sup>1</sup>, Aurora Carvalho<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Interno Complementar de Pneumologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia, Espinho EPE

<sup>2</sup> Chefe de Serviço de Pneumologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia, Espinho EPE

### RESUMO

A disfunção das cordas vocais é uma patologia que pode mimetizar a asma. Um elevado grau de suspeição é necessário para o diagnóstico, que é efectuado através de laringoscopia. Os autores descrevem o caso clínico de uma doente com o diagnóstico prévio de asma com múltiplas observações no serviço de urgência por dificuldade respiratória. Durante a investigação realizada foi constatada obstrução extratorácica nas provas de função respiratória. O teste de provocação com metacolina foi negativo. Na fibroscopia observou-se adução inspiratória dos 2/3 anteriores das cordas vocais, a qual confirmou o diagnóstico de disfunção das cordas vocais.

**Palavras-chave:** Asma, disfunção das cordas vocais, doença com movimento paradoxal das cordas vocais, estridor.

### ABSTRACT

*Vocal cord dysfunction (VCD) can mimic asthma. A high degree of suspicion is required for diagnosis, which is made by laryngoscopy. The authors present a case report of a female patient with a history of asthma who had repeated admissions to the emergency room for respiratory distress. The pulmonary function tests showed extra thoracic obstruction. Methacholine challenge test was negative. Fiberoscopy showed adduction of the anterior two-thirds of the vocal cords, which confirmed the diagnosis of vocal cord dysfunction.*

**Key-words:** Asthma, paradoxical vocal cord motion disorder, stridor, vocal cord dysfunction.

## INTRODUÇÃO

A disfunção das cordas vocais, também designada mais recentemente por doença com movimento paradoxal das cordas vocais<sup>1</sup>, é caracterizada pela adução anormal das cordas vocais durante o ciclo respiratório, predominantemente durante a inspiração, originando uma obstrução variável ao fluxo aéreo<sup>1-3</sup>.

Apesar de poder coexistir com asma, é um importante diagnóstico diferencial em doentes com sibilância e dispneia refractários ao tratamento.

A análise das curvas débito-volume pode ser compatível com obstrução extratorácica; contudo, o volume expiratório forçado no primeiro segundo (VEMS) é normal ou ligeiramente diminuído e não melhora após broncodilatação. O diagnóstico definitivo da DCV requer visualização directa das cordas vocais nos períodos de crise.

## CASO CLÍNICO

Doente de 27 anos, sexo feminino, não fumadora, referindo antecedentes de asma e síndrome depressivo há 5 anos, seguida pelo médico assistente. Sem história familiar de asma nem de atopia. Medicada habitualmente com formoterol e fluticasona, usando salbutamol como terapêutica de alívio. Referia múltiplas observações no serviço de urgência por disfonia e exacerbações da asma que coincidiam com períodos de maior stress emocional e que levavam à realização frequente de ciclos de corticoterapia oral.

Encaminhada para a consulta de alergologia com o diagnóstico de asma de difícil controlo. O exame físico realizado na consulta não apresentou alterações relevantes. Realizou radiografia pósterio-anterior de tórax e gasimetria arterial que foram normais, e testes cutâneos em picada, negativos para alérgenos habituais. Durante a realização das provas de função respiratória desenvolveu subitamente um quadro de dificuldade respiratória, acompanhado de estridor. A espirometria e as curvas de débito

## INTRODUCTION

Vocal cord dysfunction (VCD), more recently designated as paradoxical vocal cord motion disorder<sup>1</sup> is characterised by the abnormal adduction of the vocal cords during the respiratory cycle, particularly during inhalation, causing a variable obstruction in the airflow<sup>1-3</sup>.

While this can coexist with asthma, it is important to diagnose it in patients with wheezing or dyspnoea refractory to treatment.

Analysis of the flow volume curve could be compatible with extra thoracic obstruction, yet the forced expiratory volume in the first second (FEV<sub>1</sub>) is normal or slightly diminished and does not improve with bronchodilation. The definitive diagnosis of vocal cord dysfunction requires direct visualisation of the vocal cords during crisis periods.

## CASE REPORT

A 27-year-old non-smoking female, with a five-year history of asthma and depression, was followed regularly by her general practitioner. There was no family history of asthma or atopy. The patient's usual medication was formoterol and fluticasone, with salbutamol as rescue therapy. She had had repeated admissions to the emergency room for dysphonia and asthma attacks, which coincided with periods of greater psychological stress and led to frequent bouts of oral corticosteroids.

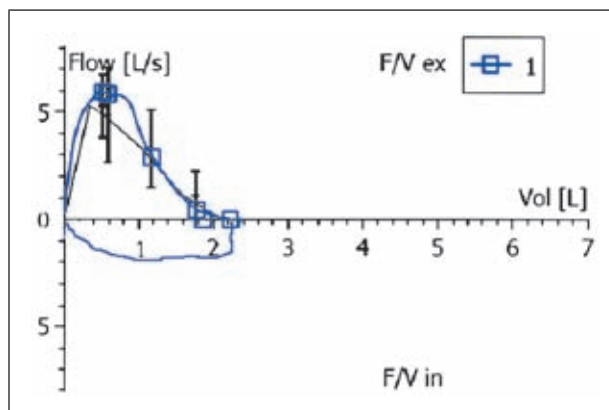
The patient was referred to an Allergology appointment for difficult to treat asthma. The examination was unremarkable. Posteroanterior chest X-ray and arterial blood gas analysis were normal and skin prick tests with the standard allergens were negative. During the lung function tests, she experienced sudden onset of respiratory distress with stridor. Spirometry and flow volume curves showed flattening of the inspiratory loop plateau, suggestive of variable extra-thoracic obstruction (Figu-

volume evidenciaram um achatamento da ansa inspiratória sugestiva de obstrução extratorácica variável (Figura 1). No decurso da investigação realizou uma fibrobroncoscopia que mostrou adução inspiratória paradoxal dos 2/3 anteriores das cordas vocais com uma fenda posterior em forma de diamante (Figura 2). A doente foi encaminhada para terapia da fala e psicoterapia com resolução dos episódios de disfunção das cordas vocais. Realizou novo estudo funcional respiratório, teste de provocação com metacolina e fibroscopia, que não revelaram alterações.

## DISCUSSÃO

A verdadeira prevalência da DCV é desconhecida, variando entre 2,8 e 12% em diferentes estudos<sup>1,4,5</sup>, sendo mais frequente em adultos jovens, predominando no sexo feminino<sup>2,4</sup>.

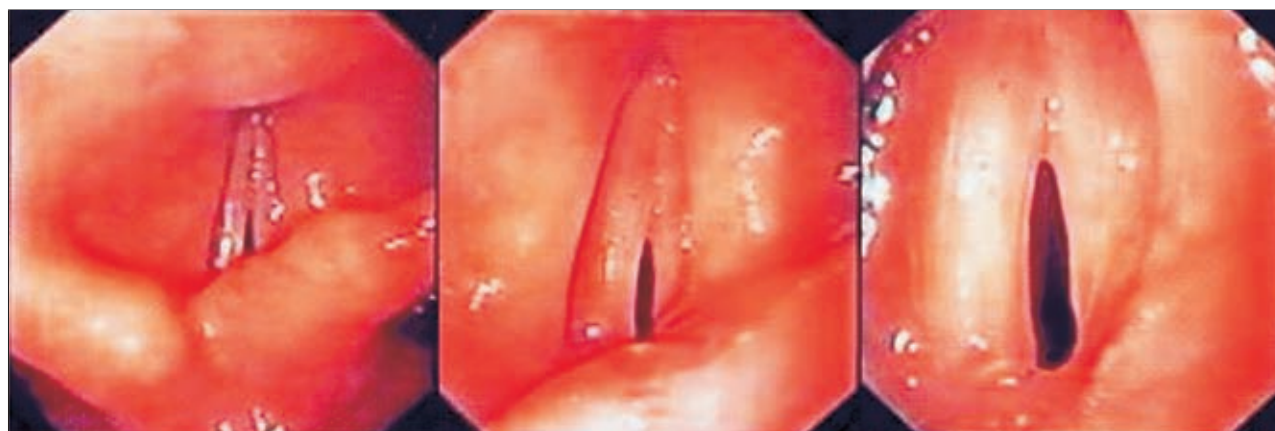
Os primeiros casos descritos de DCV já enfatizavam a importância das alterações psicológicas como factor desencadeante. A patogénese desta entidade permanece incerta; no entanto, foram identificados vários factores precipitantes que podem ser orgânicos (por exemplo, refluxo gastroesofágico – RGE, irritantes inespecíficos, infec-



**Figura 1.** Curvas de débito volume: achatamento da ansa inspiratória sugestiva de obstrução extratorácica variável

**Figure 1.** Flow-volume curve with inspiratory loop plateau, indicative of variable extra-thoracic obstruction

re 1). The patient underwent a fibrobronchoscopy which showed paradoxical adduction of the anterior two-thirds of the vocal cords with a posterior diamond-shaped opening during inspiration (Figure 2). The patient was referred to speech therapy and psychotherapy which resolved the vocal cord dysfunction episodes. Once asymptomatic, she underwent further pulmonary function study, methacholine challenge and fibroscopy, which were unremarkable.



**Figura 2.** Fibroscopia: adução inspiratória paradoxal dos 2/3 anteriores das cordas vocais com uma fenda posterior em forma de diamante

**Figure 2.** Fibroscopy showing adduction of the anterior two-thirds of the vocal cords with diamond shaped posterior opening or cleft

ções, exercício, pós-operatório) e não orgânicos (factores psicológicos, stress, depressão). Diversos mecanismos fisiopatológicos têm sido sugeridos na literatura, nomeadamente hiperreactividade laríngea, alteração da regulação do sistema nervoso autónomo, estimulação directa das terminações nervosas das vias respiratórias superiores e inferiores e hiperventilação<sup>1</sup>.

Os doentes com DCV podem apresentar sibilância, estridor inspiratório, dispneia (por vezes de esforço), tosse, toracalgia ou disfonia. Estes sintomas podem levar, erradamente, ao diagnóstico de asma, e os doentes são frequentemente tratados com broncodilatadores e corticóides inalados e/ou sistémicos em altas doses. Existem ainda casos descritos de traqueostomias e entubação traqueal. A coexistência de asma com DCV é descrita por diversos autores, sendo esta associação referida em cerca de 35 a 56% dos doentes com DCV<sup>6,7</sup>. Esta patologia deve ser sempre considerada na abordagem da asma de difícil controlo.

Para além da asma, outro diagnóstico diferencial da DCV é a paralisia das cordas vocais em adução, potencialmente *life-threatening*, que pode ter diversas etiologias, nomeadamente lesões iatrogénicas, neoplasias, doenças neurológicas, inflamatórias e causas idiopáticas.

Os episódios de DCV apresentam geralmente início e resolução súbita dos sintomas, sem o agravamento durante várias horas ou dias, habitual nas agudizações de asma.

O exame físico na DCV revela a presença de um som de tonalidade alta, geralmente inspiratório, localizado na região cervical e superior do tórax; a presença de sibilos expiratórios dispersos por ambos os campos pulmonares não é característica desta patologia. A apresentação clínica típica pode ser menos evidente em doentes com asma e DCV concomitante. Nos períodos intercrise, a avaliação clínica do doente é normal.

Os exames radiológicos de tórax são normais, não mostrando hiperinsuflação pulmonar nem o espessamento peribrônquico observado em doentes com agudização de asma. Podem ser úteis para excluir outras causas de estridor como por exemplo aspiração de corpo estranho, neoplasias ou alterações traqueais.

## DISCUSSION

The real prevalence of vocal cord dysfunction is unknown. It ranges from 2.8 – 12% in different studies<sup>1,4,5</sup>, and is more frequently seen in young adults, particularly females<sup>2,4</sup>.

The first reports of VCD already underlined the importance of psychological changes as a trigger. While the pathogenesis of this condition remains unclear, several triggers have been identified. These range from the organic (gastro-oesophageal reflux disease (GERD), non-specific irritants, infections, exertion, post-surgery) to the non-organic (psychological factors, stress, depression). Several physiopathological mechanisms have been suggested, namely laryngeal hyperreactivity, changes in regulation of the autonomous nervous system, direct stimulation of the nerve endings of the upper and lower respiratory tract, and hyperventilation<sup>1</sup>.

Vocal cord dysfunction patients can experience wheezing, inspiratory stridor, dyspnoea (sometimes on effort), cough, thoracalgia or dysphonia. These symptoms can lead to a misdiagnosis of asthma, with patients frequently being treated with bronchodilators and high dose inhaled and/or systemic corticosteroids. Cases of tracheostomies or tracheal intubation have also been described. Several authors describe asthma coexisting with VCD and this association is present in approximately 35-56% of VCD patients<sup>6,7</sup>. This condition should always be considered in cases of difficult to treat asthma.

In addition to asthma, another differential diagnosis of VCD is paralysis of the vocal cords in adduction. This is potentially life-threatening and could have several aetiologies, such as iatrogenic lesions, neoplasms, neurological or inflammatory diseases and idiopathic causes.

Vocal cord dysfunction generally has a sudden onset and sudden resolution and it does not have the prolonged exacerbations usually seen in asthma attacks.

On examination, a VCD patient will reveal a high-toned sound, usually inspiratory, and located in the upper cervical chest region. Bilateral, disperse expiratory lung wheezing is not characteristic of this pathology. The typical clinical presentation can be less evident in patients with

Os testes de função pulmonar podem sugerir, mas não confirmam, o diagnóstico de DCV. No doente assintomático, as curvas de débito volume são geralmente normais. Na presença de sintomas, pode mostrar achatamento da ansa inspiratória sugestiva de obstrução extratorácica. A ansa expiratória também pode estar achatada se existir encerramento das cordas vocais na expiração ou se existe asma simultaneamente. O VEMS é normal na presença de DCV do tipo inspiratório. Se o encerramento das cordas vocais ocorrer em ambas as fases respiratórias, o VEMS pode diminuir juntamente com uma diminuição na capacidade vital forçada (FVC), sendo a relação VEMS/FVC normal. Este facto diferencia a DCV isolada da DCV concomitante com asma, na qual a relação VEMS/FVC pode estar diminuída.

O diagnóstico de DCV exige a realização de laringoscopia para visualização directa das cordas vocais. Quando o doente está sintomático, o achado clássico é a adução inspiratória dos 2/3 anteriores das cordas vocais com uma fenda posterior em forma de diamante.

O tratamento da DCV necessita em geral de uma abordagem multidisciplinar. Deve ser explicado ao doente que se trata de uma situação benigna e autolimitada. O controlo das patologias associadas, como o RGE, a síndrome de rinorreia posterior e as condições psiquiátricas devem ser abordados de forma agressiva<sup>3</sup>.

O tratamento dos episódios agudos inclui a tentativa de acalmar o doente, podendo ser necessário o recurso a benzodiazepinas<sup>1,2</sup>. A utilização de heliox (mistura de oxigénio e hélio) tem sido recomendado como adjuvante da terapêutica nestas situações devido à sua menor densidade em relação ao ar, o que irá reduzir a turbulência na via aérea e diminuir o estridor. A utilização de máscaras com válvula inspiratória unidireccional<sup>8</sup>, assim como a administração de uma pressão positiva contínua na via aérea, têm sido testadas por alguns autores, sendo necessários mais estudos para avaliar o seu verdadeiro benefício.

O tratamento de controlo ou manutenção inclui terapia da fala associada a técnicas de controlo da respiração, com o objectivo de focar os movimentos respiratórios a

concomitant asthma. Clinical evaluation of the patient between crisis is normal. Chest X-rays are normal, with none of the lung hyperinflation or peribronchial thickening seen in acute asthma. It could be useful to rule out other possible causes of stridor, such as foreign body aspiration, neoplasms or tracheal abnormalities.

Lung function tests may suggest, but not confirm, a diagnosis of VCD. An asymptomatic patient will usually have normal flow-volume curves. If symptomatic, there may be a flattening of the inspiratory loop plateau, suggesting extra-thoracic obstruction. The expiratory loop could also be flattened if there is closing of the vocal cords on expiration, or in the presence of concomitant asthma. FEV<sub>1</sub> is unchanged by inspiratory vocal cord dysfunction. If the vocal cords close at both respiratory phases, there could be reduced FEV<sub>1</sub> in tandem with reduced forced vital capacity (FVC) but with a normal FEV<sub>1</sub>/FVC ratio. This differentiates vocal cord dysfunction in isolation from vocal cord dysfunction concomitant with asthma; in the latter the FEV<sub>1</sub>/FVC ratio may be decreased.

The diagnosis of VCD requires direct visualisation of the vocal cords via laryngoscopy. The classic finding in symptomatic patients is adduction of the anterior two-thirds of the vocal cords with a diamond-shaped posterior opening during inspiration.

Vocal cord dysfunction usually demands a multidisciplinary approach. The patient must understand that the condition is benign and self-limiting. Associated pathologies, such as gastro-oesophageal reflux, posterior rhinorrhoea syndrome and psychiatric conditions, must be aggressively controlled<sup>3</sup>.

Management of acute episodes includes attempting to calm the patient, for which the administration of benzodiazepines may be necessary<sup>1,2</sup>. Helium and oxygen mix has been recommended as adjuvant treatment in these situations due to its lighter density than air, which can cut down airway turbulence and reduce stridor. The use of unidirectional valve mask respirators and the administration of continuous positive pressure to the airway has been attempted by some authors, but further studies are necessary to assess the real benefit.



nível diafragmático. O suporte psicológico tem sido largamente utilizado e é considerado, juntamente com a terapia da fala o tratamento de primeira linha no controlo da DCV<sup>2</sup>. Em situações graves de DCV em que a terapêutica convencional falhou, a utilização de toxina botulínica parece ser uma alternativa<sup>1-4</sup>. Existem estudos recentes que avaliaram o efeito do brometo de ipratrópio na prevenção de episódios agudos de DCV desencadeada pelo exercício, sendo necessários mais estudos para confirmar estes achados<sup>9</sup>.

O caso clínico apresentado é um exemplo de DCV isolada, interpretada até à conclusão do estudo como asma de difícil controlo e medicada como tal. Apesar de a DCV não ser uma patologia frequente, devemos estar alerta para este diagnóstico. Não deverão ser menosprezados os ainda menos frequentes casos de associação de asma e DCV, que poderão estar subdiagnosticados, uma vez que o tratamento da asma melhora, pelo menos parcialmente, a sintomatologia, podendo induzir a perpetuação do diagnóstico isolado de asma.

**Declaração de potenciais conflitos de interesse:** Nenhum declarado.

*Correspondência / Correspondence to:*

Ricardo Lima

Serviço de Pneumologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia / Espinho

E-mail: ricardo9lima@hotmail.com

Management or maintenance treatment includes speech therapy associated with breathing control techniques aiming to focus respiratory diaphragm movements. Psychological support has been widely used and is considered, along with speech therapy, first line treatment in VCD management<sup>2</sup>. In severe VCD cases in which conventional treatment has failed, the use of botulinum toxin seems to be an alternative<sup>1-4</sup>. There are recent studies evaluating the effect of ipratropium bromide in preventing acute exercise-triggered VCD episodes, but further studies are needed to confirm these findings<sup>9</sup>.

This case report is one of isolated vocal cord dysfunction, interpreted/diagnosed as and medicated as difficult to treat asthma. While VCD is an uncommon condition, we should not forget this diagnosis. The even less common cases of this condition in association with asthma should not be overlooked. These can be underdiagnosed, since asthma treatment leads to an at least partial improvement of the symptoms, which may lead to a continued isolated diagnosis of asthma.

**Potential conflicts of interest disclosure:** None declared.

## REFERÊNCIAS / REFERENCES

1. Ibrahim WH, Gheriani HA, Almohamed AA, Raza T. Paradoxical vocal cord motion disorder: past, present and future. *Postgrad Med J* 2007;83(977):164-72.
2. Morris M, Allan P, Perkins P. Vocal cord dysfunction: Etiologies and treatment. *Clin Pulm Med* 2006;12:73-86.
3. Mikita JA, Mikita CP. Vocal cord dysfunction. *Allergy Asthma Proc* 2006;27(4):411-4.
4. Buddiga P. Vocal cord dysfunction. Available from: <http://www.emedicine.com/med/TOPIC3563.HTM>. Accessed in 2008 July 21.
5. Kenn K, Willer G, Bizer C, Schmitz M. Prevalence of vocal cord dysfunction in patients with dyspnoea. First prospective clinical study. *Am J Resp Crit Care Med* 1997;155:A965.
6. O'Connell MA, Sklarew PR, Goodman DL. Spectrum of presentation of paradoxical vocal cord motion in ambulatory patients. *Ann Allergy Asthma Immunol* 1995;74(4):341-4.
7. Newman KB, Mason UG, 3rd, Schmalig KB. Clinical features of vocal cord dysfunction. *Am J Respir Crit Care Med* 1995;152(4 Pt 1):1382-6.
8. Archer GJ, Hoyle JL, McCluskey A, Macdonald J. Inspiratory vocal cord dysfunction, a new approach in treatment. *Eur Respir J* 2000;15(3):617-8.
9. Doshi DR, Weinberger MM. Long-term outcome of vocal cord dysfunction. *Ann Allergy Asthma Immunol* 2006;96(6):794-9.