# Motilidad Espermática, Bronquiectasias y Sinusitis en el Diagnóstico de la Disquinesia Ciliar Primaria

MARIA LUISA GUEVARA
Servicio de Neumología, Centro Médico Naval.

#### RESUMEN

OBJETIVOS: Valorar la relación entre inmovilidad espermática y antecedente de sinusitis y bronquiectasias, con el fin de asociar una alteración ciliar común. MATERIAL Y MÉTODOS: El estudio se llevó a cabo en 17 pacientes (promedio de edad 23 años) con diagnóstico de sinusitis y bronquiectasias, a quienes se les realizó un espermatograma para evaluar inmovilidad espermática. RESULTADOS: 10 pacientes (58,83%) presentaron inmovilidad espermática, siendo uno de los casos diagnosticado de azoospermia. Estos pacientes presentaron mayores episodios de infecciones respiratorias, así como bronquiectasias difusas. Por otro lado, los pacientes con movilidad espermática conservada presentaron episodios agudos. CONCLUSIONES: La inmovilidad ciliar de las vías respiratorias, que condiciona infecciones frecuentes, puede estar relacionada con la inmovilidad ciliar espermática, ya que los cilios del organismo son estructuralmente iguales.

Palabras claves: Motilidad Espermática; Sinusitis; Bronquiectasia; Cilios.

# SPERM MOTILITY, BRONCHIECTASIS, SINUSITIS AND THE DIAGNOSIS OF PRIMARY CILIARY DYSKINESIA SUMMARY

OBJETIVES: To evaluate the association between immotile sperms and the history of bronchiectasis and sinusitis, in order to identify a common cilliary structural abnormality. MATHERIAL AND METHODS: Seventeen subjects (mean age: 23 years), with history of bronchiectasis and sinusitis underwent a spermatogram, searching for immotility of sperm. RESULTS: Ten patients (58,85%) had sperm immotility, one of which was azospermic. They had had chronic respiratory infections, as well as diffuse bronchiectasis. On the other hand, patients with preserved motility of the sperm presented mainly acute respiratory events. CONCLUSIONS: The structural abnormality leading to impaired motility of respiratory cilia, which results in frequent respiratory events, can be associated with the immotility of the sperm cilia, since human cilia structure is the same.

Key words: Spermen Motility; Sinusitis; Bronchiectasis; Cilia.

## INTRODUCCIÓN

En 1975, Afzelius (¹) describe que las alteraciones del cilio respiratorio afectan al movimiento de éste, y por lo tanto al transporte mucociliar (².3). Todo esto da como resultado una triada clínica de bronquiectasias, sinusitis crónica y, sólo en 50% de los casos, situs inversus, a la que Kartagener se refirió por primera vez en 1904 (⁴.5). Afzelius sugirió primero el término Síndrome del Cilio Inmóvil (SCI), luego numerosos reportes demostraron varios defectos ultraestructurales del cilio (⁶¹¹⁰) pero no la no ausencia de brazos de dineína de los microtúbulos ciliares (¹¹) inicialmente descrita, así como movilidad ciliar disminuida y no necesariamente presencia de cilios inmóviles.

Sleigh denominó a esta entidad Disquinesia Ciliar Primaria (DCP), pero ambos términos se usan en forma alternativa. La DCP es una entidad caracterizada por una inadecuada movilidad del cilio en las vías aéreas y en otros órganos ciliados. En su mayoría, los defectos son congénitos, pero también se ha descubierto otros defectos ultraestructurales en asociación con infecciones virales agudas y bacterianas crónicas (12). Los síntomas incluyen episodios recurrentes de bronquitis en asociación con sinusitis, poliposis nasal, otitis y fertilidad reducida (12,13).

Los elementos ultraestructurales de los cilios que están ausentes o desorganizados provocan la incapacidad del cilio para moverse, por lo que se reduce la depuración mucociliar (14) provocando la aparición de infecciones respiratorias crónicas que ocasionan sinusitis y bronquiectasias. El diagnóstico se basa en el estudio con microscopía electrónica de los cilios de la mucosa nasal.

Múltiples publicaciones relacionan la DCP con alteraciones ciliares ligadas a la herencia, pero existe escaza información acerca de su asociación con la movilidad espermática, que fue inicialmente descrita por Pedersen en 1975 (15).

Con el fin de evaluar la asociación de la DCP con la movilidad espermática buscamos evidencia circunstancial basada en estudios de movilidad de colas de espermatozoides (16), y la asociamos con la presencia de bronquiectasias difusas y sinusitis que nos hicieran sospechar este síndrome, en vista de la limitación que generalmente se tiene para establecer el diagnóstico en estos casos (17).

## MATERIAL Y MÉTODOS

Se utilizó un método prospectivo de recolección de datos a través de la observación de los resultados, desde mayo de 1996 hasta febrero de 1997, en el cual se evaluó a 17 pacientes varones, todos miembros activos de la Marina de Guerra del Perú, con antecedentes de sinusitis y bronquitis a repetición. La evaluación se realizó con el paciente hospitalizado, después de una revisión meticulosa de sus antecedentes, poniendo énfasis en los episodios repetidos de rinorrea, broncorrea, hemoptisis, sinusitis, infecciones respiratorias repetidas y bronquiectasias.

Los casos de sinusitis se diagnosticaron a través de los hallazgos de niveles hidroaéreos o engrosamiento de la mucosa nasal en las radiografías de senos paranasales. El diagnóstico de bronquiectasias se realizó por medio de una tomografía de tórax, considerándose para el diagnóstico la presencia de bronquios dilatados, imágenes quísticas o engrosamiento peribronquial. Se diagnosticó bronquiectasias difusas cuando afectaban a los dos pulmones, o más de dos lóbulos en un mismo pulmón. El estudio de movilidad espermática se realizó a través de un espermatograma realizado en una muestra de semen extraído mediante eyaculación voluntaria a primera hora de la mañana, previa abstinencia sexual de ocho días. Se establecía el diagnostico de inmovilidad espermática cuando se encontraba una cantidad de espermatozoides inmóviles mayor o igual a 60%.

Para el análisis se utilizó una variable categórica (espermatograma), la cual se relacionó con las demás variables a través de la prueba exacta de Fisher, considerandose un nivel de significación de p < 0.05. Los datos fueron procesados utilizando el software Epi Info versión 6.04a.

#### RESULTADOS

Los 17 pacientes eran varones jóvenes, con una edad promedio de 23 años, todos con diagnóstico de sinusitis y bronquiectasias. De ellos, sólo 10 (58,83%) cumplían con los criterios diagnósticos de DCP, definidos por Afzelius (18,21,26). De los 17 espermatogramas, uno presentó azoospermia (Tabla N° 1).

Tabla Nº 1.- Grado de movilidad espermática en pacientes con diagnóstico de bronquiectasias y sinusitis. Centro Médico Naval (1996-1997).

Caso N°	Grado de Movilidad			
	Muy Móviles (%)	Móviles (%)	Inmóviles (%)	
1	20	10	70	
2	10	5	85	
3	20	20	60	
4	Azoospermia	Azoospermia	Azoospermia	
5	30	10	60	
6	20	10	70	
7	10	10	80	
8	10	10	80	
9	30	10	60	
10	20	0	80	
11	70	20	10	
12	20	40	40	
13	20	40	40	
14	20	30	50	
15	10	40	50	
16	20	50	30	
17	20	60	20	

Ningún paciente tenía antecedentes familiares relevantes, las características clínicas se expresan en la Tabla Nº 2, observándose que todos los pacientes tenían antecedente de broncorrea y rinorrea. La hemoptisis fue un hallazgo frecuente, estando relacionada a bronquiectasias difusas.

Tabla N° 2.- Antecedentes de cuadros respiratorios e infertilidad en pacientes con diagnóstico de bronquiectasias y sinusitis. Centro Médico Naval (1996-1997).

Clínica	n	%
Broncorrea	17	100,0
Rinorrea	17	100,0
Hemoptisis	8	47,0
Poliposis Nasal	5	29,4
Cefalea	10	58,8
Broncoespasmo	11	64,7
Infertilidad Masculina	1	5,8

El resultado clínico observado de la asociación de movilidad espermática con las diferentes patologías encontradas, nos muestra que la neumonía fue más frecuente en pacientes con resultados de inmovilidad espermática (60%).

La asociación de inmovilidad espermática con radiografía de tórax anormal fue significativa, esto demuestra la incidencia de procesos infecciosos en dichos pacientes (Tabla N° 3).

Tabla N° 3.- Complicaciones observadas en pacientes con diagnóstico de bronquiectasias y sinusitis. Centro Médico Naval (1996-1997).

Complicación	п
Neumonía	6
Hemoptisis	7
Bronquiectasias difusas	7
Radiografía anormal	7
Pansinusitis	8
Poliposis nasal	4

# DISCUSIÓN

La bronquiectasia sigue siendo una patología frecuente en nuestro país. No constituye una entidad con una etiología única y siempre definida (20) y lleva a un proceso crónico que va a demandar atención médica durante un período prolongado, lo que nos hace reflexionar sobre la necesidad de establecer un diagnóstico y definir el factor etiológico inicial. En este estudio se ha intentado demostrar lo propuesto por Afzelius en relación con el diagnóstico de la DCP. Él afirmaba que se debe sospechar esta entidad si se combinan signos de infección bronquial y sinusitis desde la infancia con uno de los criterios siguientes: (a) situs inversus, (b) espermatozoides vivos pero inmóviles, (c) cilios con defectos ultraestructurales, (d) sinusitis, poliposis, otitis u otros síntomas respiratorios bajos (21).

Para establecer el diagnóstico definitivo, bastará con demostrar una disminución de la depuración mucociliar naso-bronquial mediante técnicas radioisotópicas o con el estudio ultraestructural de los cilios con microscopía electrónica (22).

Es importante reconocer que los defectos ultraestructurales de los cilios pueden ser adquiridos mas que congénitos (23), y que algunas veces ha sido difícil diferenciar ambas formas en piezas únicas de mucosa nasal y bronquial (24). Los defectos ultraestructurales se ven también en pacientes con infecciones virales, fumadores, pacientes con bronquitis crónica, influenza y en algunos sujetos sanos que no manifiestan enfermedad aguda ni crónica (15). De hecho, en nuestra serie todos tuvieron bronquiectasias y sinusitis asociadas a neumonías a repetición, lo cual se observó en pacientes con inmovilidad espermática. Un caso presentó azoospermia, lo que nos llevaría a pensar en el Síndrome de Young como posible factor etiológico. La esterilidad se considera un signo de DCP, pero de no ocurrir así, no es excluyente, ya que en publicaciones previas el 20% de los casos son fértiles (26).

Los cilios del organismo son estructuralmente iguales y las alteraciones ultraestructurales son producto de desórdenes congénitos o adquiridos por factores externos influyentes. Dichas alteraciones afectan la función del cilio, produciendo inmovilidad de éste o, en la mayoría de los casos, disquinesia, afectando la depuración mucociliar y, por ende, condicionando la aparición de infecciones respiratorias crónicas, predisponiendo a bronquiectasias y sinusitis. El hecho de que se haya encontrado 10 pacientes con inmovilidad espermática entre una selección de 17 a lo largo de un año sugiere que la prevalencia de esta asociación en la población general puede ser mayor.

## **CONCLUSIONES**

- En nuestro estudio se encuentra que es posible asociar la inmovilidad ciliar de los espermatozoides con la de los cilios nasales y bronquiales en pacientes que padecen infecciones respiratorias a repetición, en las cuales la alteración ciliar podría ser el factor causal.
- 2. Se recomienda, para diagnosticar a un grupo de pacientes que presenten bronquiectasias desde la juventud asociadas a síntomas nasales e infeccio-

nes respiratorias frecuentes, solicitar un espermatograma para evaluar la movilidad espermática. Si se observa inmovilidad debemos realizar un estudio ultraestructural de cilios obtenidos por biopsia nasal o bronquial para el diagnóstico definitivo.

#### **BIBLIOGRAFÍA**

- Afzelius BA. A human syndrome caused by immotile cilia. Science 1975; 193: 317-9.
- Rayner CH, Rutman A. Ciliary disorientation alone as a cause of Primary Ciliary Diskinesia Syndrome. Am J Respir Crit Care Med 1996; 153(1): 123-9.
- Eliasson R, Mossberg B. The Immotile Cilia Syndrome. A congenital ciliary abnormality as an etiologic factor in chronic airway infections and male sterility. N Engl J Med. 1977; 297: 11-6.
- 4) Pedersen M, Morkassel E, Nielsen M, Mygind N. Kartagener's Syndrome. Chest 1981; 80(6):858-63.
- Barranco MJ, Armengot M, Cardá C, Císcar MA, Peris R, Ramón M, Juan G. Síndrome de Discinesia Ciliar Primaria. Una Patología Frecuente. Arch Bronconeumol 1994; 30: 19-22.
- Robbert U, Ruthland J. Ciliary defects in healthy subjects, bronchiectasis and Primary Ciliary Dyskinesia. Am J Respir Crit Care Med 1995; 151: 1559-67.
- 7) Sturgess J, Chao J, Wong J. Aspin N, Turner P. Cilia with defective radial spokes. N Engl J Med 1979; 300: 53-6.
- 8) Sturgess J, Chao J, Turner JAP. Another cause of impaired ciliary motility. N Engl J Med 1980; 303: 318-21.
- Wilson R, Rayner CFJ, Dewar A, Greenstone MA, Cole PJ. Primary and Secondary Ciliary Disorientation. Symposium Convention Center London, 1996.
- 10) Kawakami M, Mattori Y, NakamuraS. Reflection of structural abnormality in the axoneme of respiratory cilia in the clinical features of Immotile Cilia Syndrome. Intern Med 1996; 35: 617-23.
- 11) Chao J, Turner JAP, Sturgess JM. Genetic heterogeneity of dynein-deficiency in cilia from patients with respiratory disease. Am Rev Respir Dis 1982; 126: 3022-305.
- 12) Carson J, Collier A, Shih Chin. Adquiered ciliary defects in nasal epithelium of children with acute viral upper respiratory infections. N Engl J Med 1985; 312: 463-8.
- 13) Ramet J, Byloos J, Delree M, Sacre L, Clement P. Neonatal diagnosis of the Immotile Cilia Syndrome. Chest 1986; 90: 138-9.
- 14) Salathe M, Riordan T, Wanner A. Treatment of Mucociliary Dysfunction. Chest 1986; 90:138-139.
- 15) Rossman C, Forrest J. The Dyskinetic Cilia Syndrome. Abnormal ciliary motility in association with abnormal ciliary ultrastructure. Chest 1981; 80: 860-4.
- 16) Vanderzwalmen N, Vandamme B, Segal Bertin. Fertilizing ability of immotile spermatozoa after intracytoplasmatic sperm injection. Human Reprod 1996; 11-10: 21.
- 17) Min YG, Shin JS, Choi SH, Chi JG, Yoon CJ. Primary Ciliary Dyskinesia. Ultraestructural defects and clinical feature. Rhinology 1995; 33: 189-93.

- 18) Fraser Paré. III Edición, Editorial Médica Panamericana 1992, pag 2061.
- Loret de Mola R, Blasco L. Conceptos actuales sobre la infertilidad masculina, ginecología y obstetricia. Ed. Concytec. 1996.
- Capelastegui A, Ramos Gonzales J. Bronquiectasias: Etiopatogenia y métodos diagnósticos. Arch Bronconeumol 1994; 30: 153-62.
- 21) Afzelius. Immotile Cilia. Syndrome and ciliary abnormalities of human cilia. Chest 1981; 80: 796-8
- 22) Fox B, Bull TB, Makey A. The significance of ultrastructural abnormalities of human cilia. Chest 1981; 80(6 Suppl): 796-9.
- 23) Gonzales S, von Bassewitz DB. Atipical cilia hiperplastic, metaplastic and displastic human bronquial mucosa. Ultrastruc Pathol 1985; 8: 345-7
- 24) Smallman LA, Gregory J. Ultrastructural anormalities of cilia in the human respiratory tract. Hum Pathol 1986; 17: 848-55.
- 25) Handelsman DJ, Conway AJ, Boylan LH. Young's Syndrome obstructive azoospermia and cronic sinopulmonary infections. N Engl J Med 1984, 310 (1): 303-9.
- Afzelius B. A disorder of ciliary motility. Hosp Pract 1986; 21: 73-80.