

# Laringectomía total vs protocolo de conservación de órgano en cáncer de laringe estadio IV: comparación de supervivencia

Total laryngectomy vs organ conservation protocol in stage IV laryngeal cancer: survival comparison

## AUTORES

Sánchez Llanos E · Perales Enguita A · Calatayud Lallana LM · Castillo Hernández J · Comet Ruiz J · De Miguel García F

FALTA PROCEDENCIA

## RESUMEN

Actualmente, en el tratamiento del carcinoma de laringe e hipofaringe se opta por la realización de protocolo de conservación de órgano frente a la cirugía para preservar la integridad del órgano fonatorio laríngeo. Hemos comparado la supervivencia y mortalidad de ambos tratamientos en los pacientes diagnosticados de carcinoma estadio IV en los años 2014-2015 en el hospital universitario Miguel Servet de Zaragoza. No existen diferencias estadísticamente significativas entre ambos tratamientos en nuestros pacientes por lo que es correcto optar por la preservación de órgano en lugar de la cirugía.

### PALABRAS CLAVE:

Supervivencia, mortalidad, carcinoma laringe estadio IV, protocolo de conservación de órgano.

## SUMMARY

Nowadays, the standardized treatment of the hypopharynx and larynx cancer is the organ conservation protocol in front of the surgery to preserve the larynx. We have compared the survival and the mortality of both treatments of the patients with IV stadium cancer of hypopharynx and larynx diagnosed in 2014 and 2015 in Miguel Servet University Hospital. There are not statistical differences between both treatments in our patients so it's correct to prefer the organ preservation protocol in front of the surgery.

### KEY WORDS:

Survival, mortality, stadium IV larynx cancer, organ conservation protocol.

## Objetivos

Analizar la respuesta tumoral, la recidiva local y la supervivencia en los pacientes sometidos a el protocolo de conservación de órganos y compararlas con los resultados publicados, tanto con la laringectomía total, como con el tratamiento con quimioterapia y radioterapia, realizado por otros autores.

## Material y Métodos

Se han analizado los pacientes diagnosticados de cáncer con afectación de laringe e hipofaringe (laringe glótica, laringe supraglótica, laringe subglótica e hipofaringe) estadio IV de nuestro centro en los años 2014 y 2015.

El análisis estadístico se ha realizado mediante el programa estadístico Jamovi 1.2.22. Para ello se aplicó una prueba de chi cuadrado ( $\chi^2$ ) y la prueba exacta de Fisher para el análisis de la mortalidad; y un estimador de Kaplan-Meier para generar curvas de supervivencia, siendo estas comparadas mediante el test de Log-Rank.

## Resultados

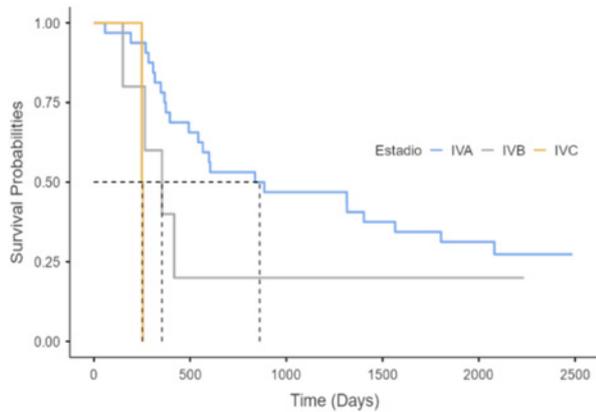
Se presentaron 427 pacientes en el comité de tumores por parte de Otorrinolaringología en el hospital universitario Miguel Servet. De estos, 41 fueron diagnosticados de cáncer de hipofaringe y faringe en estadio IV. Fueron excluidos 2 pacientes por falta de información.

De los 39 pacientes, 36 eran varones y 3 mujeres. Actualmente han fallecido 29 pacientes (74,4%). La mediana de seguimiento ha sido de 599 días, 2262 días en los pacientes vivos y 395 en los muertos.

La edad media de los pacientes estudiados fue de 58,4 años con un rango intercuartílico de 15,8 años.

Al respecto de las localizaciones, 24 fueron de supraglotis (79,5%), 8 de glotis-subglotis (20,5%) y 7 de hipofaringe (17,9%). No existen diferencias en cuanto a la supervivencia ( $p$  0,309) y mortalidad ( $p$  0,086), si bien, cabe destacar que el 100% de los pacientes con localización hipofaríngea están muertos, mientras que los de otras localizaciones no (75% de supraglotis y 50% de glotis-supraglotis).

Analizando el estadije tumoral (TNM, T, N, M, estadio tumoral), no se observaron diferencias estadísticamente significativas en la mortalidad en ninguno de las variables. En cambio, sí que se observaron diferencias en cuanto a la supervivencia según el tipo de estadije ( $p$  Log-Rank  $<0,01$ ). El estadio IVA (local moderadamente avanzado) mostró una supervivencia media de 736 días, el IVB (local muy avanzado) de 297 días, y el IVC (diseminado) de 252 (Fig. 1).

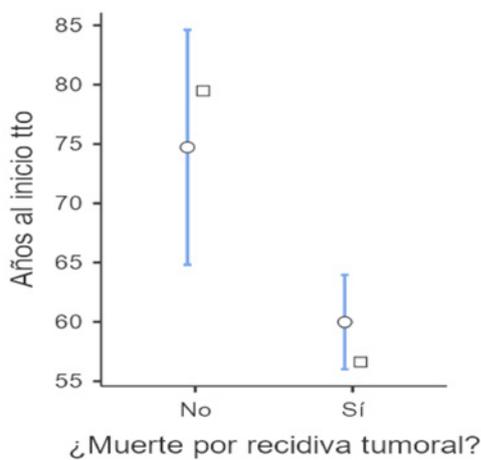


**Figura 1:** se muestra la gráfica de Kaplan-Meier resultante de la comparación de supervivencia entre los diferentes subestadios tumorales. Los pacientes con estadio IV A (azul) muestran una mayor supervivencia en comparación con los IVB (gris) y IVC (amarillo).

Analizando las causas de muerte, 22 de los pacientes murieron a causa del tumor (recidiva o diseminación) mientras que 7 por causas ajenas al tumor. NO existieron diferencias estadísticamente significativas entre las diferentes causas de muerte ( $p \chi^2$  0,123). En cambio, la edad al inicio del tratamiento sí que fue influyente en la causa de muerte ( $p$  T-Student 0,003), siendo más frecuente la muerte por causa no tumoral en los pacientes más ancianos (Fig. 2).

**Causas de muerte no tumoral:**

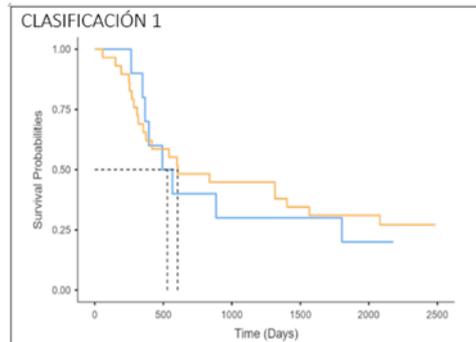
- Accidente cerebrovascular (2)
- Neumonía (1)
- Vólvulo (1)
- Cáncer pulmón (1)
- Toxicidad por quimiorradioterapia (Mucositis G2-3 y anorexia) (1)



**Figura 2:** se muestra una figura de distribución de mortalidad respecto a la edad de los pacientes estudiados. Se observa que los pacientes con mayor edad tienen más riesgo de muerte no tumoral. En la parte de abajo se muestran las causas de muerte no tumoral.

Se realizaron 2 clasificaciones respecto al análisis del tratamiento recibido. La clasificación 1 diferencia entre los que han recibido cirugía (IQ) y los que han recibido protocolo de conservación de órgano (PCO). Respecto a la clasificación 2, se diferencia entre los que han recibido PCO, IQ y los que comenzaron PCO pero no hubo respuesta por lo que se pasó a realizar cirugía (PCO-IQ).

No existieron diferencias estadísticamente significativas en cuanto a la mortalidad y la supervivencia de los pacientes en ninguna de las clasificaciones (Fig. 3).

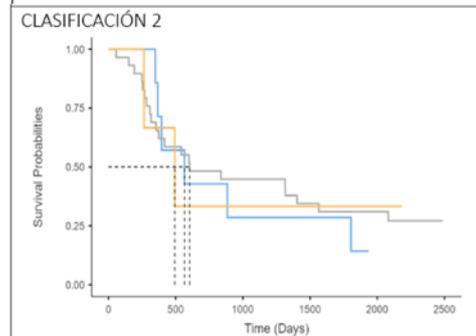


**Clasificación 1: según se interviniera (IQ) o se realizara PCO:**

- 10 IQ
- 29 PCO
- $p \chi^2$  mortalidad: 0,636
- P Log-Rank supervivencia: 0,754

**Mediana supervivencia:**

- IQ = 444 días
- PCO = 374 días



**Clasificación 2: según IQ, PCO o se iniciara PCO con QT de inducción y no hubiera respuesta, transformándose en IQ (PCO-IQ)**

- 7 IQ
- 39 PCO
- 3 PCO-IQ
- $p \chi^2$  mortalidad : 0,732
- $p$  Log-Rank supervivencia: 0,927

**Mediana supervivencia:**

- IQ = 481 días
- PCO = 374 días
- PCO-IQ = 379 días

**Figura 3:** se observa los análisis de supervivencia y mortalidad en los dos tipos de clasificaciones según intervención. En ambos grupos se observa una supervivencia similar en la curva de Kaplan-Meier; y una mortalidad que no es estadísticamente significativa en cuanto al tratamiento se refiere.

## Discusión

Primeramente, cabe destacar que el número de paciente sobre los que se ha hecho un estudio es escaso, siendo solamente el 14% de los pacientes que se presentan en el comité. Esto es debido a lo acotado de las condiciones para ser aceptados (estadio IV) y al poco tiempo estudiado (2014 y 2015).

Por otro lado, es notoria la mayoría masculina de los pacientes masculinos presentados (92%) debido, seguramente, al peor estilo de vida del género masculino hace aproximadamente medio siglo<sup>1</sup>. En nuestro caso no existen diferencias estadísticamente significativas entre ambos sexos. Sin embargo, hay estudios que muestran que las mujeres tienen más supervivencia global y supervivencia específica de la enfermedad que los hombres<sup>2</sup>. Esto se explicaría por el escaso número de pacientes de nuestra muestra, en concreto, de pacientes de género femenino.

En cuanto a las características de los cánceres, afortunadamente, a pesar de que el estadio IV es un estadio avanzado, la mayoría de los pacientes es diagnosticado es estadio IVA, es decir, enfermedad local moderadamente avanzada. La incidencia de los diferentes subestadios va disminuyendo con la gravedad del mismo. Esto es debido a que el cáncer de laringe es un cáncer notorio con capacidad de ser diagnosticado tempranamente por su sintomatología específica (siendo la disfonía la más característica pero también pudiendo ocurrir cambios de voz, ronquera, fatiga respiratoria y disnea)<sup>3</sup>. En nuestro caso así ocurre, siendo diagnosticados en estadios avanzados (IV) sólo el 13 % de los pacientes y, de estos, la incidencia disminuye según la gravedad, siendo el 82,1 % clasificados como IVA.

En nuestro caso, la mortalidad global a los 5 años fue del 74,6%. Esto concuerda con las cifras estándares de supervivencia, donde hay una supervivencia entre el 25 y el 59% según las series observadas<sup>3</sup>. Destacar que la mayoría de estudios de mortalidad clasifican la mortalidad general del cáncer (estadio del I al IV) sin subclasificarlos según el estadio, siendo, probablemente mayor, la mortalidad en estadios avanzados.

El tipo de tumor con más mortalidad es el localizado en la hipofaringe, si bien, en nuestro caso no existen diferencias estadísticamente significativas entre las diferentes localizaciones tumorales. Resaltar que el 100% de los cánceres de hipofaringe habían fallecido a los 5 años frente al 68,8% del resto de cánceres. Estas cifras, la proximidad de *p* al valor de significación (0,086) y el número escaso de nuestra muestra haría sospechar, sin confirmarlo, que la mortalidad de los cánceres de hipofaringe es mayor al del resto de localizaciones<sup>4</sup>.

El cáncer de laringe es más frecuente, en nuestra muestra, en hombres que en mujeres (92% vs 8%, respectivamente). Esto concuerda con la incidencia por sexo en otras publicaciones, estando alrededor del 10% la incidencia en el sexo femenino<sup>2,4-7</sup>.

El estadio tumoral por separado parece aumentar la mortalidad de los pacientes en los diferentes artículos de la literatura<sup>8-13</sup>. El problema de estas revisiones es que generan estudios univariantes de supervivencia según una sola característica (T, N, M) en todos los pacientes (desde estadio I a IV). En nuestro caso ya partimos de una clasificación de estadio IV, localmente avanzada y con una mortalidad alta. En las diferencias entre las diferentes subclasificaciones (IVA, IVB, IVC) respecto a la mortalidad no son estadísticamente significativas. En cambio, al hacer un análisis de supervivencia, sí que existen diferencias estadísticamente significativas al aplicar la prueba de Log-Rank ( $p < 0,001$ ), siendo peor la supervivencia según peor fuera el estadio tumoral.

El realizar un proceso terapéutico u otro dependerá del estadiaje TNM y morbilidad del paciente al que se le va a intervenir (contraindicación o no de quimioterapia y/o radioterapia). En nuestro hospital solemos empezar primeramente por la opción de protocolo de conservación de órgano (PCO), siendo 32 de los 39 pacientes (82%) los que iniciaron PCO, de los cuales 3 se reconvirtieron a intervención quirúrgica por el fracaso de la quimioterapia de inducción. Esto muestra como en nuestro hospital preferimos intentar que nuestros pacientes tengan la opción de mantener el habla tras el tratamiento con intención curativa, desplazando a un segundo plano la opción quirúrgica.

Comparando la supervivencia entre pacientes de ambas clasificaciones (PCO vs IQ y PCO vs IQ vs PCO-IQ) no existen diferencias estadísticamente significativas en cuanto a la supervivencia a largo plazo. La literatura hace años que ha demostrado este hecho y es por lo que se continúa haciendo dicho PCO en preferencia a la IQ<sup>14,15</sup>.

Por último, las causas de mortalidad en los pacientes intervenidos fueron muy variables, predominando la recidiva tumoral frente a patología no tumoral (75,9 vs 24,1 %, respectivamente). Cabe destacar que la edad fue un factor importante en este ámbito, dado que existían diferencias en cuanto a la edad y el tipo de muerte. Predomina la muerte por recidiva en los pacientes más jóvenes (alrededor de los 60 años) frente a la muerte no tumoral en los más ancianos (alrededor de 75 años). Dado que las causas no tumorales (ACV, neumonías, vólvulo, toxicidad quimiorradioterapia, cáncer de pulmón) son más agresivas y frecuentes en pacientes frágiles (más ancianos) es más probable la mortalidad no relacionada con el tumor frente a la causada por el mismo.

## Conclusiones

El cáncer faringolaringeo más frecuente en varones.

Incidencia estadio IV es baja, disminuyendo al aumentar estadiaje (IVA 82,1%, IVB el 12,8% y IVC el 5,1%).

La mortalidad generada en los cánceres con estadio IV es muy elevada (74,6%), no existiendo diferencias de mortalidad entre los subtipos, pero sí de supervivencia (IVA 736 días de media, IVB 297 días y IVC 252 días).

Los cánceres localizados en hipofaringe presentan una mayor mortalidad (100%) respecto al resto de localizaciones (75% supraglotis y 50% transglotis) aunque sin ser estadísticamente significativo.

La probabilidad de fallecer por causa tumoral es menor cuanto mayor es el paciente.

Analizando el tipo de tratamiento recibido (PCO vs IQ/PCO vs IQ vs PCO-IQ), no se mostraron diferencias en cuanto a mortalidad y supervivencia.

El número de pacientes estudiados es insuficiente para sacar conclusiones.

## Bibliografía

- Li H, Li EY, Kejner AE. Treatment modality and outcomes in larynx cancer patients: A sex-based evaluation. *Head and Neck* [Internet]. 2019; 1 [cited 2020 Dec 14];41(11):3764–74. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31392796/>
- Brandstorp-Boesen J, Falk RS, Boysen M, Brøndbo K. Impact of stage, management and recurrence on survival rates in laryngeal cancer. *PLoS ONE* [Internet]. 2017; 1 [cited 2020 Dec 14];12(7). Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28708883/>
- Eckel HE, Bradley PJ. Natural History of Treated and Untreated Hypopharyngeal Cancer. *Advances in Oto-Rhino-Laryngology* [Internet]. 2019 [cited 2020 Dec 21];83:27–34. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30943503/>
- Wei KR, Zheng RS, Liang ZH, Sun KX, Zhang SW, Li ZM, et al. Incidence and mortality of laryngeal cancer in China, 2014. *Zhonghua zhong liu za zhi [Chinese journal of oncology]* [Internet]. 2018 Oct 23 [cited 2020 Dec 21];40(10):736–43. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30392337/>
- Cayonu M, Tuna EU, Acar A, Dinc ASK, Sahin MM, Boynuegri S, et al. Lymph node yield and lymph node density for elective level II–IV neck dissections in laryngeal squamous cell carcinoma patients. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology* [Internet]. 2019 Oct 1 [cited 2020 Dec 21];276(10):2923–7. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31317320/>
- Matsumoto F, Mori T, Matsumura S, Matsumoto Y, Fukasawa M, Teshima M, et al. Prognostic significance of surgical extranodal extension in head and neck squamous cell carcinoma patients. *Japanese Journal of Clinical Oncology* [Internet]. 2017 Aug 1 [cited 2020 Dec 21];47(8):699–704. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28430988/>
- Geng J, Lei Y rong, Pei S guang. Correlation between Survivin expression and laryngeal carcinoma: A meta-analysis. *Journal of Huazhong University of Science and Technology - Medical Science* [Internet]. 2017 Dec 1 [cited 2020 Dec 21];37(6):965–73. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29270761/>
- Oh J, Prisman E, Olson R, Berthelet E, Wu J, Tran E, et al. Primary organ preservation vs total laryngectomy for T4a larynx cancer. *Head and Neck* [Internet]. 2019 [cited 2020 Dec 21];41(9):3265–75. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31215719/>
- Patel SA, Qureshi MM, Dyer MA, Jalisi S, Grillone G, Truong MT. Comparing surgical and nonsurgical larynx-preserving treatments with total laryngectomy for locally advanced laryngeal cancer. *Cancer* [Internet]. 2019 Oct 1 [cited 2020 Dec 21];125(19):3367–77. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31206637/>
- Jones TM, De M, Foran B, Harrington K, Mortimore S. Laryngeal cancer: United Kingdom National Multidisciplinary guidelines. *The Journal of laryngology and otology* [Internet]. 2016 May 1 [cited 2020 Dec 21];130(S2):S75–82. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/27841116/>
- Dietz A, Wichmann G, Kuhnt T, Pfreundner L, Hagen R, Scheich M, et al. Induction chemotherapy (IC) followed by radiotherapy (RT) versus cetuximab plus IC and RT in advanced laryngeal/hypopharyngeal cancer resectable only by total laryngectomy-final results of the larynx organ preservation trial DeLOS-II. *Annals of Oncology* [Internet]. 2018 [cited 2020 Dec 21];29(10):2105–14. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30412221/>
- Dietz A, Wichmann G, Kuhnt T, Pfreundner L, Hagen R, Scheich M, et al. Induction chemotherapy (IC) followed by radiotherapy (RT) versus cetuximab plus IC and RT in advanced laryngeal/hypopharyngeal cancer resectable only by total laryngectomy-final results of the larynx organ preservation trial DeLOS-II. *Annals of Oncology* [Internet]. 2018 [cited 2020 Dec 21];29(10):2105–14. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30412221/>
- Čoček A, Ambruš M, Dohnalová A, Chovanec M, Kubecová M, Licková K. Locally advanced laryngeal cancer: Total laryngectomy or primary non-surgical treatment? *Oncology Letters* [Internet]. 2018 May 1 [cited 2020 Dec 21];15(5):6701–8. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29725412/>
- Laryngeal and Hypopharyngeal Cancer: Stages and Grades | Cancer.Net [Internet]. [cited 2020 Dec 21]. Available from: <https://www.cancer.net/cancer-types/laryngeal-and-hypopharyngeal-cancer/stages-and-grades>
- Medical Illustrations Gallery | Cancer.Net [Internet]. [cited 2020 Dec 21]. Available from: <https://www.cancer.net/es/navigating-cancer-care/cancer-basics/medical-illustrations-gallery?mitid=234>

# Incrementos de la presión intraocular tras el uso de corticoides intranasales

Increases in intraocular pressure after the use of intranasal corticosteroids

## AUTORES

Roque Taveras L · García Clemente JM · Orte Aldea C · Lorenzo Coronado JM · Cortizo Vázquez E · Rivas Reynoso JM  
Palacín Fumat BP · Puyuelo Aventín I · Padgett Tomas EF

\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital General de Barbastró - \*\*Jefe de Sección del Servicio de Oftalmología en el Hospital de Barbastró -  
\*\*\*Medicina Preventiva de Salud Pública, Hospital de Tortosa Virgen de la Cinta. - \*\*\*\*Jefe de Sección del Servicio de Oftalmología del Hospital General  
de Villarrobledo - \*\*\*\*\*FEA del Servicio de Oftalmología en el Hospital de Barbastró

## RESUMEN

Los corticoides tópicos intranasales han demostrado ser la forma más eficaz de tratamiento farmacológico para la rinitis alérgica. Algunos autores cuestionan su seguridad debido a los posibles efectos sistémicos, pudiendo inducir aumentos de la presión intraocular y glaucoma. Partiendo de este planteamiento iniciamos un estudio con el objetivo de identificar posibles aumentos de la PIO en pacientes sin antecedentes oftalmológicos tras un mes de tratamiento con corticoides tópico intranasal. Durante el estudio no se encontró aumento significativo de la presión intraocular coincidiendo este hallazgo con otros similares, sin embargo, es preciso la realización de más estudio con un mayor número de pacientes y un control por parte de oftalmología de los pacientes en tratamiento con corticoides tópico a largo plazo.

### PALABRAS CLAVE:

Presión intraocular, corticoides tópicos intranasal, glaucoma, rinitis.

## SUMMARY

Topical intranasal corticosteroids have been shown to be the most effective form of pharmacological treatment for allergic rhinitis. Some authors question its safety due to the possible systemic effects, which can induce increases in intraocular pressure and glaucoma. Based on this approach, we began a study with the aim of identifying possible increases in IOP in patients with no ophthalmological history after one month of treatment with topical intranasal corticosteroids. During the study, no significant increase in intraocular pressure was found, this finding coinciding with other similar ones. However, it is necessary to carry out more study with a greater number of patients and a control by ophthalmology of patients under treatment with topical corticosteroids long-term.

### KEY WORDS:

Intraocular pressure, intranasal topical corticosteroids, glaucoma, rhinitis.

## Introducción

Durante las últimas décadas, los corticoides tópicos intranasales (CTIN) han demostrado ser la forma más eficaz de tratamiento farmacológico para la rinitis alérgica<sup>1,2</sup>. Sus potentes propiedades antiinflamatorias afectan directamente los mecanismos fisiopatológicos de la inflamación nasal<sup>3,4</sup>. Múltiples ensayos clínicos controlados con placebo en adultos y niños han demostrado su eficacia en la reducción de los síntomas nasales, incluidos los estornudos, la picazón, la rinorrea y la congestión<sup>3</sup>; por ello, además de formar parte del tratamiento de primera línea para la rinitis<sup>5,6</sup> son ampliamente utilizados en el tratamiento de la rinosinusitis crónica con pólipos nasales<sup>7</sup>.

La seguridad y eficacia de los CTIN están bien establecidas<sup>4</sup>, muchos autores refieren que estos suelen ser más eficaces que los antihistamínicos orales para el tratamiento de la rinitis alérgica<sup>1,6,8</sup>. Sin embargo, hay algunos que cuestionan si los CTIN se deben utilizar debido a los posibles efectos sistémicos, como ocurre con los corticoides orales<sup>1,8</sup>.

El tratamiento prolongado con corticoides orales puede aumentar el riesgo de cataratas subcapsulares posteriores o glaucoma de ángulo abierto<sup>4</sup>. El glaucoma es la segunda causa principal de disminución de la visión<sup>5</sup> y de las primeras causas de ceguera irreversible en el mundo<sup>9,10</sup>. Representa un grupo de enfermedades oculares con una tríada característica de elevación de la presión intraocular (PIO), daño del nervio óptico y pérdida de campo visual. El aumento de la PIO en pacientes susceptibles causa daño directo al nervio óptico que implica la pérdida de células ganglionares de la retina<sup>5</sup>. El característico aumento de la excavación del nervio conduce a pérdida progresiva de campo visual periférico que eventualmente puede conducir a la ceguera irreversible, si no se trata<sup>5</sup>.

Por tanto, es fundamental conocer no sólo sus características farmacológicas, sino también sus posibles efectos secundarios y contraindicaciones<sup>11</sup>. A partir de ello nos planteamos identificar posibles aumentos significativos de la PIO en pacientes sin antecedentes oftalmológicos tras un mes de tratamiento con CTIN, usando de referencia 21 mmHg como valor máximo aceptado de normalidad<sup>12,13</sup>.

## Objetivos

Identificar posibles aumentos significativos de la PIO en pacientes sin antecedentes oftalmológicos tras un mes de tratamiento con CTIN.

## Material y Métodos

Se realizó un estudio longitudinal de tipo prospectivo para valorar el riesgo de los CTIN y su posible efecto sobre la PIO. Para ello se identificaron 16 ojos de 8 pacientes sin antecedentes de patología oftalmológica y sin antecedentes de aumento de la PIO que, tras valoración otorrinolaringológica iniciarán una pauta de CTIN (avamys 27.5 mcg por pulverización o budesonida 100 mcg; ambos con pauta estándar recomendada de 2 pulverizaciones por día), siendo remitidos previo a su inicio de tratamiento al servicio de oftalmología para valoración oftalmológica y toma inicial de la PIO en horario matutino, con el objetivo de medición de esta antes del inicio de tratamiento y repetir valoración un mes después de su uso.

## Resultados

El tamaño muestral inicial fue de 26 ojos de 13 pacientes que inician tratamiento con corticoides nasales, de los cuales 5 pacientes no acuden a la segunda toma de presión intraocular, por lo cual se excluyen del estudio. No pudiendo continuar con el estudio y valoración de nuevos pacientes, por verse marcada la investigación con el inicio de la pandemia ocasionada por el COVID 19 (Tabla I), afectando así la población representativa del estudio en el aporte de evidencia.

La PIO media para cada par de ojos era 15,4 +/- 4,3 mmHg (rango: 9-23,5 mmHg) para el examen uso preseteroide, 18,0 +/- 3,8 mmHg (rango: 12-24,5 mmHg), presentando en la toma control 14,8 +/- 3,4 mmHg (rango: 9,5-22,0 mmHg). Con estos datos preliminares se observa que no hay un aumento significativo de la PIO en los pacientes del estudio.

## Discusión

Los corticoides son fármacos frecuentemente utilizados en patología de cabeza y cuello debido a su importante poder antiinflamatorio<sup>11,14</sup>. Presentan múltiples efectos secundarios<sup>11,14</sup>; uno de estos el glaucoma de ángulo abierto que aparece por el uso prolongado de glucocorticoides. Son particularmente susceptibles los pacientes glaucomatosos, sus familiares de primera línea, los que reciben altas dosis y tratamiento prolongado. De ahí la recomendación por algunos autores de que los pacientes que reciben glucocorticoides por vía sistémica por un período mayor a 3 semanas deben ser supervisados por un oftalmólogo periódicamente, siendo el glaucoma una contraindicación absoluta para su uso<sup>14</sup>.

En 1994, Opatowsky y Col. informaron de dos pacientes en los que la iniciación de dipropionato de beclometasona intranasal resultó en aumento de la PIO. En ambos casos, los pacientes no tenían antecedentes personales o familiares de glaucoma, y el aumento de la PIO fue lo suficientemente elevada como para justificar la iniciación de la medicación para el glaucoma. Con la suspensión del CTIN la PIO volvió a un rango normal, manteniéndose incluso después de la interrupción de los medicamentos contra el glaucoma<sup>5</sup>.

Tabla I: NIVELES DE PIO INICIAL Y AL MES DE TRATAMIENTO CON CTIN.

No. de Paciente	Edad	Sexo	Diagnóstico	PIO inicial OD/OI	PIO al mes OD/OI
1	42	Mujer	Rinitis alérgica	18/19	17/17
2	43	Mujer	Rinitis alérgica	13/13	12/12
3	66	Varón	Congestión nasal	20/20	20/21
4	23	Varón	Rinitis crónica	14/14	12/12
5	27	Varón	Insuficiencia respiratoria nasal	20/20	17/18
6	77	Varón	Insuficiencia respiratoria nasal	20/21	18/18
7	56	Mujer	Ototubaritis	16/15	17/16
8	24	Mujer	Otitis media serosa	15/14	12/11

OD: ojo derecho, OI: Ojo izquierdo. PIO: presión intraocular.

Buit y Col. en 2005 realizaron una revisión retrospectiva de historia clínica de pacientes con glaucoma que usaban esteroides nasales. Se determinó la PIO promedio para cada par de ojos para el uso preesteroides, uso de esteroides y 2 exámenes consecutivos de uso postesteroides. Se identificaron veinticuatro ojos de 12 pacientes con pautas de esteroides intranasales, observando una reducción significativa de la PIO con la suspensión de los CTIN en pacientes con glaucoma. Concluyen que estos pueden contribuir al aumento de la PIO, y que se justifica la pregunta de si un paciente tiene glaucoma antes de iniciar la medicación<sup>15</sup>.

Seiberling y Col. en 2013 realizaron un estudio prospectivo en dos grupos de pacientes con rinosinusitis crónica y poliposis nasosinusal tratados con budesonida para valorar el riesgo de los CTIN y el efecto sobre la PIO. Al igual que en nuestro estudio se excluyeron los pacientes con antecedentes de PIO elevada o glaucoma. Obteniendo resultados similares a nuestro estudio. Concluyeron que la budesonida intranasal administrada por un período de al menos 1 mes no parecen aumentar la PIO<sup>7</sup>.

En la misma línea, Valenzuela y Col. en 2019 realizaron una revisión bibliográfica sobre el uso de los CTIN en la rinitis y su efecto sobre la PIO, las cataratas o el glaucoma. Encontrando como resultados un total de 484 estudios y 10 ensayos controlados aleatorios que cumplieron con los criterios de inclusión. El metanálisis de 2226 pacientes reveló que el riesgo relativo de PIO elevada en los que recibieron CTIN fue de 2,24 (IC del 95%: 0,68 - 7,34) en comparación con el placebo. El aumento absoluto de la incidencia de PIO elevada en pacientes que utilizan CTIN en comparación con placebo fue del 0,8% (IC del 95%: 0% - 1,6%). No hubo casos de glaucoma tanto en los grupos de placebo como en los de CTIN a los 12 meses. Concluyeron que el uso de CTIN no se asocia con un riesgo significativo de elevación de la PIO o de desarrollar una catarata subcapsular posterior en pacientes con rinitis alérgica y no se notificaron casos de glaucoma a los 12 meses. Sin embargo, agregaron que los estudios futuros deben evaluar formalmente el glaucoma en lugar de utilizar las medidas de la PIO como un sustituto<sup>4</sup>.

Mohd Zain y Col también en 2019 realizaron un estudio en el que incluyeron 100 ojos de 50 pacientes en tratamiento con CTIN a largo plazo (> 2 años) para la rinitis alérgica y 90 ojos de 45 controles. Se excluyeron los pacientes que tomaban otras formas de esteroides y los factores de riesgo de glaucoma. Se midió la PIO y se tomaron fotos del disco óptico estereoscópico no midriático de cada ojo. En estos observaron que el uso prolongado de CTIN causa un

aumento estadísticamente significativo de la PIO en pacientes con rinitis alérgica, aunque no se observaron cambios significativos en el disco glaucomatoso. Los autores sugieren tras su hallazgo que los pacientes con uso prolongado de CTIN se sometan a un examen ocular anual para controlar la elevación de la PIO y que aquellos con factores de riesgo adicionales de glaucoma se controlen de cerca para detectar glaucoma<sup>16</sup>.

Claramente, parece que no hay consenso en cuanto a si los CTIN verdaderamente impactan en la PIO. Varios estudios declaran que en dosis adecuadas son seguros para el uso en pacientes<sup>17</sup>. La pregunta sigue siendo si este impacto, incluso si sólo un ligero aumento de la PIO, es significativa para justificar cualquier cambio en las prácticas de tratamiento, sobre todo en pacientes sin antecedentes personales o familiares de glaucoma<sup>5</sup>.

La reversibilidad de la elevación de la PIO inducida por esteroides también ha sido expuesta. En general, la PIO volverá a la normalidad dentro de 2 a 4 semanas después de la interrupción del fármaco<sup>5,15</sup>, pero cualquier pérdida visual que se origine durante su uso es de carácter permanente<sup>14</sup>.

## Limitación del Estudio

El estudio se vio afectado en cuanto al número de casos al incidente ocasionado por la pandemia del Covid 19, siendo preciso paralizar la continuidad de este por el riesgo que representa la toma de la presión intraocular tanto para el médico como para el paciente, a espera de continuar con el estudio una vez controlada la pandemia.

## Conclusiones

Podemos concluir que no está muy clara la relación entre el uso de corticoides inhalados y el incremento de PIO, sin embargo, todo paciente que utilice los corticoides inhalados a medio o largo plazo deberá controlar su presión intraocular de manera periódica mientras dure el tratamiento y ser prescritos con cautela especialmente en pacientes con factores de riesgo y con glaucoma, donde podría ser recomendable realizar controles de PIO durante el tratamiento.

Esta serie de casos tiene algunas limitaciones, sin embargo marca un antecedente para evaluaciones futuras y realización de estudios de casos control con un periodo de seguimiento más amplio, que permita aportar evidencias que valoren el posible efecto de los corticoides.

## Bibliografía

- Scadding GK. Corticosteroids in the treatment of pediatric allergic rhinitis. *J Allergy Clin Immunol*. 2001;108(1 Suppl):S59-64.
- Bielory L. Intranasal corticosteroids and the eye: from negative ocular effects to clinical efficacy as a class effect. *Ann Allergy Asthma Immunol Off Publ Am Coll Allergy Asthma Immunol*. 2008;100(5):506-8.
- Wise SK, Lin SY, Toskala E, Orlandi RR, Akdis CA, Alt JA, et al. International Consensus Statement on Allergy and Rhinology: Allergic Rhinitis. *Int Forum Allergy Rhinol*. 2018;8(2):108-352.
- Valenzuela CV, Liu JC, Vila PM, Simon L, Doering M, Lieu JEC. Intranasal corticosteroids do not lead to ocular changes: a systematic review and meta-analysis. *The Laryngoscope*. 2019;129(1):6-12.
- Bergmann J, Witmer MT, Slonim CB. The relationship of intranasal steroids to intraocular pressure. *Curr Allergy Asthma Rep*. 2009;9(4):311-5.
- Allen DB. Systemic effects of intranasal steroids: an endocrinologist's perspective. *J Allergy Clin Immunol*. 2000;106(4 Suppl):S179-190.
- Seiberling KA, Chang DF, Nyirady J, Park F, Church CA. Effect of intranasal budesonide irrigations on intraocular pressure. *Int Forum Allergy Rhinol*. 2013;3(9):704-7.
- Howland WC. Fluticasone propionate: topical or systemic effects? *Clin Exp Allergy J Br Soc Allergy Clin Immunol*. 1996;26 Suppl 3:18-22.
- Li G, Lee C, Agrahari V, Wang K, Navarro I, Sherwood JM, et al. In vivo measurement of trabecular meshwork stiffness in a corticosteroid-induced ocular hypertensive mouse model. *Proc Natl Acad Sci U S A*. 2019;116(5):1714-22.
- Mursch-Edlmayr AS, Ng WS, Diniz-Filho A, Sousa DC, Arnold L, Schlenker MB, et al. Artificial Intelligence Algorithms to Diagnose Glaucoma and Detect Glaucoma Progression: Translation to Clinical Practice. *Transl Vis Sci Technol*. 2020;9(2).
- Iniesta Turpín J, Pérez Aguilera R, Amorós Rodríguez L. *Farmacología Aplicada En Otorrinolaringología*. Ponencia Of SEORL-PCF. 2011.
- Al-Obaida I, Al Owaifeer AM, Ahmad K, Malik R. The relationship between axial length, age and intraocular pressure in children with primary congenital glaucoma. *Sci Rep*. 2020;10.
- Jaén-Díaz JI, Cordero-García B, López-de-Castro F, De-Castro-Mesa C, Castilla-López-Madrirdejos F, Berciano-Martínez F. Variabilidad diurna de la presión intraocular. *Arch Soc Esp Oftalmol*. 2007;82(11):675-9.
- Céspedes Valcárcel, Alfredo. Farmacología oftalmológica. Glucocorticoides. *Rev Cubana Oftalmol*. 1997;10(1-2):45-51.
- Bui CM, Chen H, Shyr Y, Joos KM. Discontinuing nasal steroids might lower intraocular pressure in glaucoma. *J Allergy Clin Immunol*. 2005;116(5):1042-7.
- Mohd Zain A, Md Noh UK, Hussein S, Che Hamzah J, Mohd Khialdin S, Md Din N. The Relationship Between Long-term Use of Intranasal Corticosteroid and Intraocular Pressure. *J Glaucoma*. 2019;28(4):321-4.
- Pedersen S. Assessing the effect of intranasal steroids on growth. *J Allergy Clin Immunol*. 2001;108(1 Suppl):S40-44.

## Correspondencia

**Dra. Lucrecia Roque Taveras**

C/ Teruel, 1 - 4E

22300 BARBASTRO (Huesca)

Email: lucrecia\_roque@hotmail.com

# Displasia fibrosa de cornete inferior: a propósito de un caso

Fibrous dysplasia of the inferior turbinate: case report

## AUTORES

Rebolledo Bernad L\* · Urpegui García A\*\* · Fernández Liesa R\*\* · Roque Taveras L\* · Orte Aldea C\* · Cortizo Vázquez E\*

\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital de Barbastro.

\*\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza.

### RESUMEN

La displasia fibrosa es una alteración ósea benigna cuya afectación a nivel nasal es poco frecuente. El tratamiento dependerá de la sintomatología, optando por actitud expectante en casos asintomáticos o por cirugía endoscópica si presentan clínica nasal. Presentamos el caso de una paciente con displasia fibrosa del cornete inferior derecho.

#### PALABRAS CLAVE:

Displasia fibrosa, cornete inferior.

### SUMMARY

Fibrous dysplasia is a benign bone disorder whose nasal involvement is rare. The treatment will depend on the symptoms, opting for an expectant attitude in asymptomatic cases or for endoscopic surgery if they present nasal symptoms. We report the case of a patient with fibrous dysplasia of the right inferior turbinate.

#### KEY WORDS:

Fibrous displasia, inferior turbinate.

## Introducción

La displasia fibrosa es una entidad benigna caracterizada por un reemplazo progresivo de la estructura ósea normal por tejido fibroso y óseo inmaduro<sup>1,2,3</sup>. Constituye el 7,5% de las neoplasias óseas benignas. Según su extensión, puede ser monostótica si afecta a un solo hueso (75-80%), o poliostótica si afecta a varios (20-25%)<sup>1,2</sup>. La forma monostótica afecta más frecuentemente a costillas, fémur y tibia, sin predominancia por sexo y aparece entre la 2ª y 3ª década. La forma poliostótica predomina en mujeres, y en un pequeño porcentaje de casos puede acompañarse de alteraciones de la pigmentación cutánea y endocrinopatías constituyendo el síndrome de McCune-Albright<sup>1,2,3</sup>. Estudios moleculares sugieren que pueda tratarse de una enfermedad genética no hereditaria debida a una mutación esporádica en el gen GNAS1 del cromosoma 20, que codifica la subunidad alfa del receptor de la proteína G estimulante, el cual está presente en tejidos como hueso, piel, ovarios, tiroides e hipófisis, por lo que estos tejidos pueden verse afectados como ocurre en el síndrome de McCune-Albright<sup>1,2</sup>.

La afectación craneofacial es más habitual en la forma poliostótica (50-100%) en comparación con la monostótica (10-30%), y aparece típicamente alrededor de los 10 años, creciendo hasta la edad adulta. La localización más frecuente es el maxilar y la mandíbula, seguidos de los huesos frontal, parietal y occipital<sup>1,2,3</sup>. La mayoría de pacientes son asintomáticos al inicio y se diagnostica como hallazgo casual<sup>1,2,4</sup>. Sin embargo, la afectación nasosinusal es infrecuente y concretamente a nivel turbinal es muy rara<sup>1,2,3,4,5</sup>. y suele ser sintomática, pudiendo presentar obstrucción nasal, epistaxis, cefaleas, proptosis, diplopia, anosmia y sinusitis<sup>1,2,4</sup>. La enfermedad tiene un patrón de crecimiento submucoso,

por lo que la endoscopia nasal puede objetivar una lesión ocupante de espacio cubierta de mucosa normal<sup>3</sup>.

## Caso Clínico

Mujer de 58 años, con antecedentes de intolerancia a metamizol, hipertensión arterial, dislipemia, reflujo gastroesofágico, incontinencia urinaria, tabaquismo, intervenida de funduplicatura de Nissen, rótula izquierda con parálisis secundaria de extremidad inferior izquierda y posterior colocación de neuroestimulador medular, e inyección intravesical de botox.

Consulta por insuficiencia respiratoria nasal bilateral sobre todo nocturna, acompañada de rinorrea acuosa-mucosa, estornudos, prurito nasal y cefaleas frontales.

A la exploración se aprecia desviación septal anterior hacia fosa nasal izquierda y posterior hacia fosa nasal derecha, con hipertrofia de cornete inferior derecho.

Se realiza prick test que resulta positivo a epitelio de gato y perro, pero dado que la paciente no tiene contacto con dichos animales se descarta la opción de inmunoterapia.

Solicitamos radiografía de fosas y senos sin objetivar sinusopatía, por lo que ante la persistencia de la clínica se decide turbinoplastia por radiofrecuencia. Durante la intervención, se constata un aumento de tamaño del cornete a expensas de componente óseo, sin hipertrofia mucosa, que impide dicha técnica.

En el postoperatorio tardío la paciente comienza con algia facial derecha. Solicitamos TAC de fosas y senos en el que aparece engrosamiento del cornete inferior derecho con ocupación nodular heterogénea de elevada densidad de 1,4 x 3,5 x 2 cm sugestiva de benignidad.

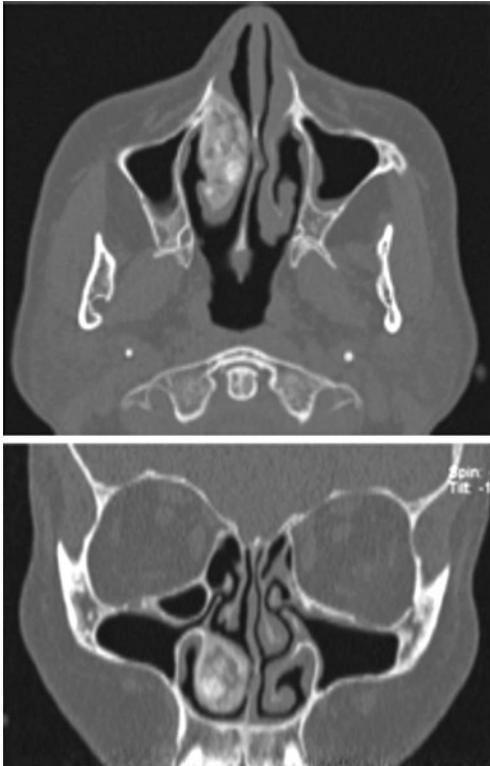


Figura 1: TC de fosas y seno paranasales donde se observa la hipertrofia de cornete inferior derecho, en corte axial (izquierda), y coronal (derecha).

Finalmente se realiza septoplastia endoscópica y turbinectomía inferior derecha mediante aspirador ultrasónico (Sonopet®), colocando taponamiento anterior bilateral 48 horas y láminas de silicona bilaterales 12 días.

El resultado anatomopatológico es de pieza de 4,4 x 1,8 x 1,6 cm donde objetivan lesión mesodérmica primaria ósea con características morfológicas acordes con displasia (osteó) fibrosa.

El postoperatorio cursa sin complicaciones y la evolución clínica ha sido satisfactoria.

## Discusión

A nivel analítico, la fosfatasa alcalina sérica y la hidroxiprolina en orina aparecen elevadas en el 75% de pacientes en la fase aguda<sup>12</sup>.

En cuanto a la histología, se observa tejido fibroso y trabéculas óseas irregulares sin existir la estructura laminar normal<sup>12,5</sup>.

Radiológicamente, las lesiones se clasifican en 3 patrones: vidrio esmerilado (56%), uniformemente esclerótico (23%) y quístico (21%)<sup>12,5</sup>. La radiografía se emplea como prueba inicial y suele sugerir el diagnóstico, sin embargo, se

requieren pruebas que aporten más detalles anatómicos. En la TC la imagen puede variar desde cambios escleróticos uniformes hasta lesiones osteolíticas focales, y en la RM las lesiones suelen ser hipointensas en T1 y variables en secuencias T2 ponderadas, dependiendo del grado de mineralización del tejido óseo. La gammagrafía ósea es útil en la forma polioestótica para identificar la distribución de las lesiones<sup>12,3</sup>.

El diagnóstico diferencial debe realizarse principalmente con el fibroma osificante y lesiones de origen condrogénico<sup>13</sup>.

Respecto al manejo, en lesiones asintomáticas, estables, que no producen deformidades ni deterioro funcional, se recomienda seguimiento. Sin embargo, lesiones sintomáticas pueden ser subsidiarias de actuación quirúrgica dependiendo de su extensión, crecimiento y afectación funcional o estética<sup>12,3,4</sup>. A nivel nasal, la mayoría de casos se pueden abordar mediante cirugía endoscópica<sup>3</sup>. La afectación aislada del cornete inferior no predispone a problemas en el manejo quirúrgico dadas sus relaciones anatómicas, pero en el caso del cornete medio o superior, la lamela lateral o basal, aumenta la morbilidad quirúrgica por su relación con la lámina cribosa y base de cráneo<sup>1</sup>.

El pronóstico de la displasia fibrosa es generalmente bueno, con peores resultados en pacientes jóvenes y en formas polioestóticas. La recidiva es rara, pero las lesiones pueden presentar un crecimiento insospechado si se extirpan durante la fase activa de crecimiento<sup>12</sup>. Se ha descrito la transformación sarcomatosa espontánea, pero es muy infrecuente (menos del 1%), y ocurre en pacientes que han recibido radioterapia previa<sup>12,3</sup>.

## Conclusiones

La displasia fibrosa afecta muy raramente a los cornetes nasales. En el diagnóstico son esenciales las pruebas de imagen para valorar las relaciones anatómicas. El tratamiento es quirúrgico y a nivel nasal generalmente mediante abordaje endoscópico, excepto en pacientes asintomáticos y lesiones estables en los que puede realizarse seguimiento.

## Bibliografía

1. Bhat V, Kansal K, Krishna SH, Pobbysetty R, Hassan S. Fibrous dysplasia of the middle nasal turbinate: imaging and clinical significance. *BJR Case Rep.* 2016; 2;2(4):20150296.
2. Park HJ, Cho MS, Lee SS. Fibrous dysplasia of the inferior turbinate. *Int J Clin Exp Pathol.* 2013;6(3):531-5.
3. Karligiotis A, Terranova P, Dallan I, Castelnuovo P. Monostotic fibrous dysplasia of the inferior turbinate. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;146(6):1035-6.
4. Sitki Gozeler M, Kilic K, Sedat Sakat M, Ucuncu H. A rare location for fibrous dysplasia. The middle turbinate. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2016;133(5):371-372.
5. Alvarez Vázquez A, Anes González G, Fernández García N. Isolated fibrous dysplasia of the inferior turbinate. *Acta Otorrinolaryngol Esp.* 2013;64(4):312-3.

# Síndrome de Lemierre causado por streptococcus constellatus en situación de pandemia

Streptococcus constellatus causing Lemierre's syndrome during the global COVID-19 pandemia

## AUTORES

Escribano Peñalva A · Matallana Barahona S · Vela Gajón P · Gasos Lafuente A · Munuera · Jurado M  
Alfonso Collado I · Salceda Artola\*

Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa, Zaragoza

\*Servicio de Radiología del Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa, Zaragoza

### RESUMEN

El síndrome de Lemierre, también conocido como sepsis post-angina, se caracteriza por un cuadro que consiste en una bacteriemia con trombosis de la vena yugular interna y desprendimiento de émbolos sépticos metastásicos.

Se relaciona principalmente con infecciones de origen orofaríngeo. En este caso clínico reportamos el desarrollo de un síndrome de Lemierre complicado con extensión mediastínica por *Streptococcus constellatus*, de probable origen orofaríngeo. El objetivo de estas líneas es hacer una revisión de la literatura acerca de la epidemiología y manejo clínico de los pacientes con síndrome de Lemierre.

#### PALABRAS CLAVE:

Síndrome de Lemierre, trombosis, émbolos sépticos, *Streptococcus Constellatus*.

### SUMMARY

Lemierre's syndrome, also known as postanginal sepsis, is characterized by bacteremia with internal jugular vein thrombosis and releasement of metastatic septic emboli. It is mainly related to oropharyngeal infections. In this clinical case we report the development of a complicated Lemierre's syndrome with mediastinal extension due to

*Streptococcus constellatus*. The aim of these lines is to review the literature regarding epidemiology and clinical management of patients with Lemierre's syndrome.

#### KEY WORDS:

Lemierre's syndrome, thrombosis, septic emboli, *Streptococcus Constellatus*.

## Introducción

Paciente varón de 40 años sin antecedentes médicos de interés, que acude al servicio de urgencias por cuadro de reciente aparición de expectoración hemoptoica. Dos semanas antes había presentado clínica de odinofagia y sensación de disfagia con fiebre termometrada de más de 38º, intensa astenia y sudoración nocturna. Por ello, había acudido a su centro de salud e iniciado tratamiento anti-biótico. Las consultas sucesivas de revisión se realizaron vía telefónica. Ante la persistencia de la clínica e inicio de expectoración hemoptoica con coágulos decide acudir a urgencias para valoración.

Tras una primera evaluación y analítica general en el servicio de urgencias, según la escala SOFA, impresiona de posible cuadro séptico (SatO2 97% con gafas nasales a 2 litros, plaquetas 46.000 y PAM 56 mmHg). El paciente inicia una trombopenia por consumo y gran elevación de parámetros de reacción aguda por lo que ingresa en el servicio de medicina interna para estudio. Durante el ingreso se solicita TC cérvico-tóraco-abdominal donde objetiva colección carotídea derecha con extensión mediastínica y trombosis venosa de la yugular y tronco braquiocefálico derecho (Fig. 1).



Figura 1: A) Colección cervical profunda con extensión pericarotídea derecha y en contacto con vena yugular interna. Diseminación mediastínica. Trombosis vena yugular interna y del tronco venoso braquiocefálico derecho.

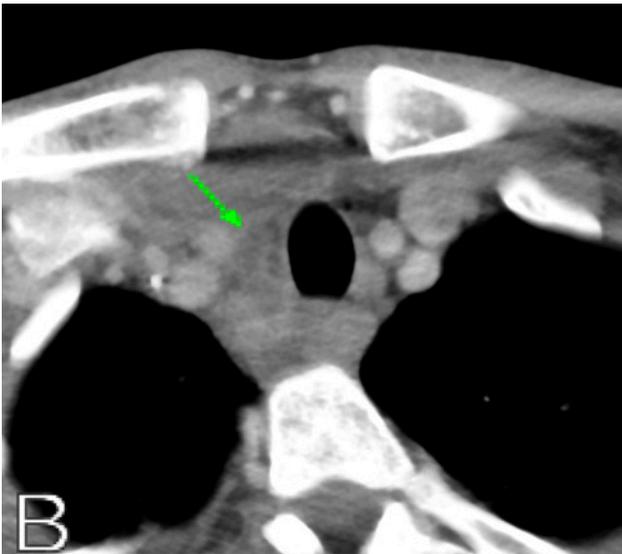


Figura 1: B) Colección retroesternal con puente mediastínico y diseminación a espacios para/retro-faríngeos

Se solicita colaboración al servicio de Otorrinolaringología del hospital y quienes tras una fibrolaringoscopia que resulta normal y teniendo en cuenta los hallazgos del TC se decide

intervención quirúrgica en dos tiempos: cervicotomía-traqueotomía y toracotomía de urgencias junto con el servicio de Cirugía torácica. En los hemocultivos y muestras microbiológicas de las secreciones obtenidas en quirófano se aísla *Streptococcus constellatus* por lo que se inicia tratamiento con Piperacilina/tazobactam y clindamicina.

El paciente presenta una evolución favorable en planta, sin embargo a los 6 días inicia episodios de dolor torácico de características pleuríticas y desaturaciones. Se realiza ECG y ETT (ecocardiograma transtorácico) que resultan anodinos. Ante la sospecha de persistencia del proceso subyacente, se repite TAC cérvico-torácico que pone en evidencia lesiones pseudonodulares pulmonares bilaterales muy sugerentes de émbolos sépticos

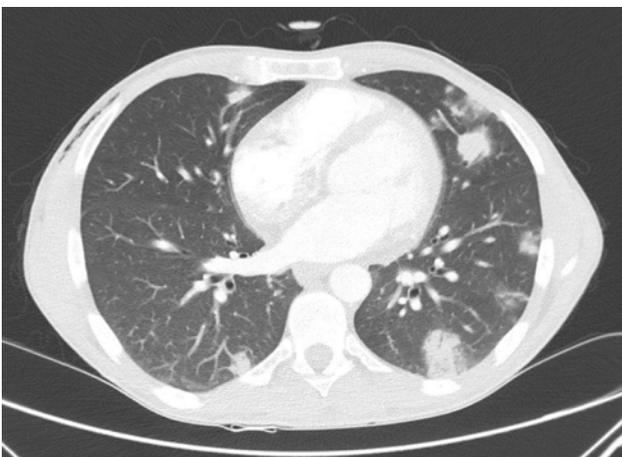


Figura 2: Corte axial de TC en ventana de partes blandas. Lesiones pulmonares pseudonodulares rodeadas por un halo periférico altamente sugestivas de émbolos sépticos.

Se reajusta tratamiento antibiótico para cubrir endocarditis y pauta anticoagulante. Presenta una recuperación favorable con buen estado general y resolución aparente del cuadro. Sin embargo, a los siete días el paciente presenta un hematoma masivo cervical por rotura longitudinal disecante de la yugular interna derecha a nivel de la salida del tronco braquiocefálico. Se decide traslado a quirófano donde se realiza esternotomía para control del sangrado pero el paciente entra en parada cardiorrespiratoria y finalmente exitus.

## Discusión

El síndrome de Lemierre es una urgencia otorrinolaringológica con altas tasas de mortalidad que requiere asistencia sanitaria precoz. Las circunstancias de pandemia que han envuelto el transcurso de este caso, han estado intrínsecamente relacionadas con el curso de los acontecimientos. Los pacientes demoran la asistencia a centros sanitarios por el miedo a poder infectarse y además desde los centros de salud, se está saturando el recurso de las consultas telefónicas, lo que da lugar a diagnósticos tardíos y evoluciones desfavorables.

El síndrome de Lemierre, también conocido como sepsis post-angina o necrobacilosis humana, fue descrito por primera vez en 1936 por Lemierre como una infección orofaríngea, que en el plazo de 1-3 semanas se acompaña de una tromboflebitis séptica de la vena yugular interna con posterior siembra de émbolos sépticos<sup>2</sup>.

La mortalidad en la era preantibiótica era mayor del 90%. Sin embargo, actualmente, tanto la incidencia como la mortalidad de este síndrome han descendido sustancialmente. Casi en el 85% de los casos el origen es orofaríngeo; en concreto a nivel de la amígdala palatina.

Son muy pocos los casos en los que el punto de acceso es un absceso odontogénico o una mastoiditis<sup>3</sup>.

Generalmente este síndrome se relaciona con el microorganismo anaerobio *Fusobacterium necrophorum*, microorganismo saprófito de la cavidad de mucosa oral. También se ha descrito relación con *Klebsiella pneumoniae*, *Prevotella*, *Bacteroides*, *Streptococcus*, *Staphylococcus* y otras especies de *Enterococcus*<sup>14</sup>.

El síndrome de Lemierre suele afectar a adultos entre 16-25 años sin patología médica de interés<sup>5</sup>. El paciente descrito presenta todas las manifestaciones típicas de un síndrome de Lemierre: colección cérvico-mediastínica, tromboflebitis séptica de la yugular y del tronco braquiocefálico y embolismos sépticos pulmonares. En este caso asociado a una bacteriemia por *Streptococcus constellatus*.

Clínicamente se suele manifestar como un cuadro de fiebre, disfagia, trismus, dolor en el cuello de forma unilateral. A nivel pulmonar el paciente puede referir disnea, pleuritis o hemoptisis<sup>6</sup>. La trombosis de la yugular suele pasar inadvertida, aunque puede manifestarse como dolor

a la palpación, inflamación y/o induración cervical a nivel del ángulo de la mandíbula o del esternocleidomastoideo. Existe elevación de los parámetros de inflamación aguda. Normalmente los pacientes desarrollan taquicardia, taquipnea, hipotensión y saturaciones por debajo de 95%, de ahí el nombre de “sepsis post-angina”<sup>7</sup>.

Se debe realizar un diagnóstico precoz con el fin de garantizar la vía aérea. Se aconseja realizar una traqueotomía en las primeras horas junto con una buena exploración quirúrgica y desbridamiento. El drenaje mediante toracotomía debe utilizarse cuando haya afectación mediastínica. Generalmente se suelen realizar más de un desbridamiento quirúrgico hasta llegar a controlar la infección.

A pesar de la trombosis de la vena yugular interna, no existen estudios que demuestren que la ligadura de la misma mejore la supervivencia/recuperación<sup>8</sup>.

Los émbolos sépticos que se desprenden son altamente resistentes a la penetración por parte de los antibióticos, es por ello que se aconseja el uso de dos o tres familias diferentes<sup>9</sup>. La combinación de penicilina, carbapenem o piperacilina/tazobactam a menudo en combinación con metronidazol es un terapia altamente eficaz. Actualmente no se ha establecido la duración óptima del tratamiento, esta debe individualizarse según la gravedad del cuadro y los resultados<sup>10,11</sup>.

El uso de anticoagulantes, en concreto de heparina de bajo peso molecular, sí que parece que en casos en los que se evidencia progresión de la trombosis, fiebre persistente o hemocultivos positivos de repetición a pesar de adecuado tratamiento antibiótico, mejora el pronóstico de la tromboflebitis y de los émbolos sépticos<sup>12,13,14</sup>. No obstante, dada la baja incidencia de este tipo de infección, no existen ensayos clínicos que detallen los beneficios que supone el uso de anticoagulantes. Se debe valorar el riesgo beneficio individual y en el caso de iniciarla, mantenerla al menos durante 3 meses<sup>15</sup>.

## Conclusión

Concluyendo, el síndrome de Lemierre es un cuadro con altas tasas de mortalidad cuyo diagnóstico se suele demorar, dada la baja incidencia y ausencia de criterios diagnósticos unificados. Para el diagnóstico se requiere un examen clínico completo, conocimiento de la relación entre infección orofaríngea y asociación con síndrome de Lemierre, recoger hemocultivos y muestras microbiológicas lo antes posible para iniciar el tratamiento antibiótico. Además se debe evaluar la presencia de una posible trombosis de la vena yugular preferentemente con imágenes de TC. Y por último, en el tratamiento se debe combinar antibióticos sistémicos, drenaje de colecciones y valorar tratamiento anticoagulante.

## Bibliografía

1. Noy D, Rachmiel A, Levy-Faber D, Emodi O. Lemierre's syndrome from odontogenic infection: Review of the literature and case description. *Ann Maxillofac Surg* 2015;5:219-25
2. Lemierre A. On certain septicaemias due to anaerobic organisms. *Lancet*. 1936;227:701-3.
3. Moore BA, Dekle C, Werkhaven J. Bilateral Lemierre's syndrome: A case report and literature review. (238-40). *Ear Nose Throat J*. 2002;81:234-6.
4. Wani P, Antony N, Wardi M, Carlos ER, Teleb M. The forgotten one: lemierre's syndrome due to gram-negative rods prevotella bacteremia. *Am J Case Rep* 2016;17:18-22.
5. Noy D, Rachmiel A, Levy-Faber D, Emodi O. Lemierre's syndrome from odontogenic infection: Review of the literature and case description. *Ann Maxillofac Surg*. 2015;5(2):219-225.
6. Sinave CP, Hardy GJ, Fardy PW. The Lemierre syndrome: suppurative thrombophlebitis of the internal jugular vein secondary to oropharyngeal infection. *Medicine (Baltimore)* 1989; 68:85
7. Hoehn KS. Lemierre's syndrome: the controversy of Anticoagulation. *Pediatrics* 2005;115:1415-6.
8. Lustig LR, Cusick BC, Cheung SW, Lee KC. Lemierre's syndrome: Two cases of postanginal sepsis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1995;112:767-72.
9. Hughes CE, Spear RK, Shinabarger CE, Tuna IC. Septic pulmonary emboli complicating mastoiditis: Lemierre's syndrome revisited. *Clin Infect Dis*. 1994;18:633-5
10. Agrafiotis M, Moulara E, Chloros D, et al. Lemierre syndrome and the role of modern antibiotics and therapeutic anticoagulation in its treatment. *Am J Emerg Med*. 2015;33(5):733.3-4.
11. Johannesen KM, Bodtger U. Lemierre's syndrome: current perspectives on diagnosis and management. *Infect Drug Resist*. 2016;9:221-227.
12. Nakamura S, Sadoshima S, Doi Y, Yoshioka M, Yamashita S, Gotoh H, et al. Internal jugular vein thrombosis, Lemierre's syndrome; oropharyngeal infection with antibiotic and anticoagulation therapy - A case report. *Angiology*. 2000;51:173-7
13. Bondy P, Grant T. Lemierre's syndrome: What are the roles for anticoagulation and long-term antibiotic therapy? *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2008;117:679-83.
14. López Vazquez A, Sebastian Cortes Jm, Alfonso Collado JI et al. Tromboflebitis de la vena yugular interna secundaria a infección orofaríngea. *O.R.L. ARAGON* 2012; 15 (1) 22-23.
15. Riordan T, Wilson M. Lemierre's syndrome: more than a historical curiosa. *Postgrad Med J*. 2004;80(944):328-334.

# Osteomas de conducto auditivo interno: presentación de dos casos

Internal auditory canal osteomas: two cases report

## AUTORES

Rebolledo Bernad L\* · Fraile Rodrigo JJ\*\* · Fernández Liesa R\*\* · Roque Taveras L\* · Orte Aldea C\* · Cortizo Vázquez E\*

\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital de Barbastro.

\*\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza.

### RESUMEN

El osteoma de conducto auditivo interno (CAI) es un tumor óseo benigno muy raro, y suele ser asintomático. La TC es la prueba de imagen de elección. En general el tratamiento es conservador realizando seguimiento mediante pruebas de imagen. Presentamos 2 casos con distintas características clínicas, manejados ambos de forma conservadora.

#### PALABRAS CLAVE:

Osteoma, conducto auditivo interno

### SUMMARY

Internal auditory canal osteoma is a very rare benign bone tumor, and it is usually asymptomatic. CT is the imaging test of choice. In general, the treatment is conservative with follow-up through imaging tests. We report 2 cases with different clinical features, both managed conservatively.

#### KEY WORDS:

Osteoma, Internal auditory canal.

## Introducción

El osteoma es un tumor óseo benigno de lento crecimiento<sup>1</sup>, que aparece con frecuencia en el hueso temporal, especialmente en la mastoides y el conducto auditivo externo<sup>2,3</sup>. Sin embargo, el osteoma de CAI es muy raro y suele ser un hallazgo casual ya que habitualmente permanece asintomático<sup>2,3,4,5</sup>. Puede llegar a estrechar el CAI de manera significativa provocando compresión de los pares craneales séptimo y octavo, generando la consiguiente clínica facial o acústico-vestibular con hipoacusia, vértigo o acúfenos<sup>1,3,4,5</sup>.

## Caso 1

Mujer de 20 años, sin antecedentes de interés, que consultó por sensación de taponamiento ótico persistente de año y medio de evolución. En la exploración, la otoscopia y la audiometría eran normales. Se solicitó potencial evocado auditivo de tronco cerebral, sin encontrar alteraciones. En la TC apareció un nódulo calcificado de 3,4 mm estenosando la salida del CAI, implantado en el borde del conducto y proyectándose hacia ángulo pontocerebeloso. En la RM se visualizaba pequeña excrescencia ósea de unos 3 mm en la pared medial anterosuperior del CAI izquierdo, estenosando el paso del haz nervioso en su entrada al conducto. Se decidió realizar controles periódicos, y en la última TC la lesión permanece estable tras casi 2 años de seguimiento (Fig. 1).

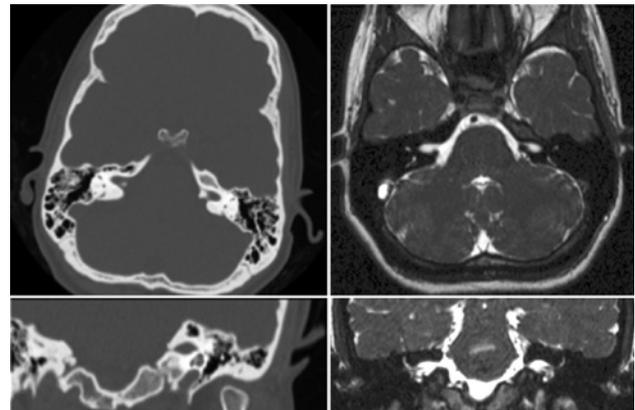
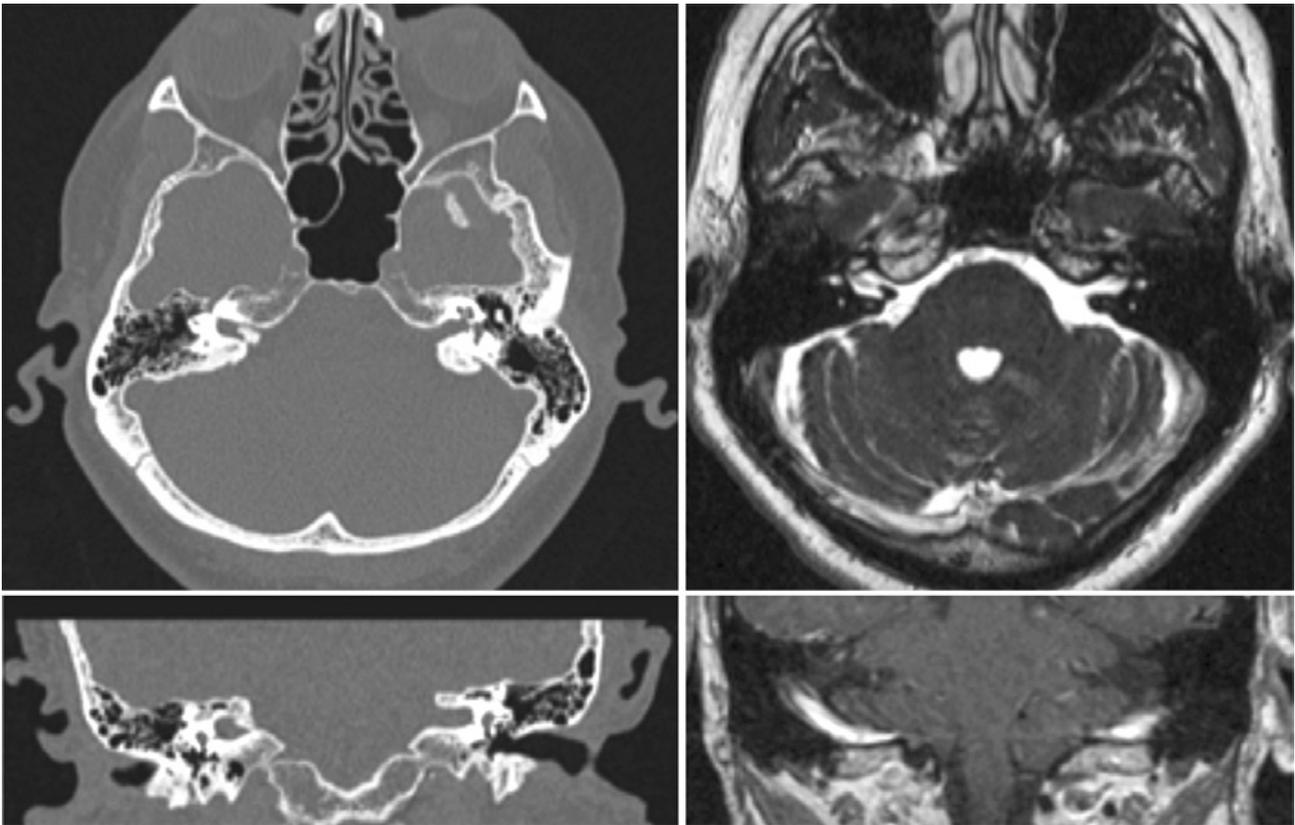


Figura 1: Imágenes caso 1: A la izquierda TC en ventana ósea (axial arriba, coronal abajo), a la derecha RM en secuencia FIESTA (axial arriba, coronal abajo), observando lesión ósea en CAI izquierdo.

## Caso 2

Mujer de 59 años, sin antecedentes de interés, que consultó por hipoacusia y acúfenos en oído izquierdo. En la exploración, la otoscopia era normal, y en la audiometría presentaba una hipoacusia neurosensorial leve-moderada en agudos en oído izquierdo. Se solicitó potencial evocado auditivo de tronco cerebral y videonistagmografía, que no revelaron alteraciones. En la RM se observó ocupación de CAI derecho por tumoración de 6 x 3,4 mm con ausencia de realce tras inyección de contraste y vacío de señal. Ante la sospecha por su comportamiento de formación ósea se rea-



**Figura 2:** Imágenes caso 2: A la izquierda TC en ventana ósea (axial arriba, coronal abajo), a la derecha RM en secuencia FIESTA (axial arriba) y FSE 1 (coronal abajo), observando lesión ósea en CAI derecho.

lizó TC, que confirmaba la presencia de lesión ósea, unilateral, pediculada con base de implantación estrecha, a nivel de pared posterosuperior de CAI derecho, de unos de 6 x 3,4 x 4 mm compatible con el diagnóstico de osteoma. Se optó por realizar controles periódicos, y en la última TC la lesión permanece estable tras 3 años y medio de seguimiento (Fig. 2).

## Discusión

La TC es la prueba de imagen de elección presentando una densidad homogénea<sup>1</sup>, mientras en la RM a veces puede pasar desapercibido<sup>2</sup>. Suelen ser únicos, pediculados, bien delimitados, y redondeados o multilobulados<sup>12,3</sup>. A nivel anatomopatológico presentan canales fibrovasculares rodeados de hueso laminar<sup>2,3,5</sup>. El principal diagnóstico diferencial debe realizarse con la exóstosis, que suele mostrarse como múltiples lesiones bilaterales, con base de implantación ancha, y compuesta en su totalidad por hueso compacto formado por capas concéntricas de hueso subperióstico sin canales fibrovasculares<sup>2,3,4,5</sup>. Otros posibles diagnósticos diferenciales incluyen enfermedad de Paget, osteopetrosis, displasia fibrosa, schwannoma del nervio vestibular o facial, meningioma, hemangioma, lipoma o colesteatoma<sup>2,3,5</sup>. Es por esto que ante la sospecha de lesión en CAI en la RM, se debería realizar una TC para descartar que se trate de un tumor óseo<sup>2</sup>. El tratamiento del osteoma de CAI se decide en función de la gravedad de los síntomas producidos por la compresión del nervio<sup>2</sup>. En caso de pacientes asintomáticos o que permanecen estables a lo largo de los años la actitud es expectante con seguimiento mediante TC periódicas<sup>2,3,5</sup>.

Sin embargo, pacientes con afectación severa y/o riesgo de oclusión completa del CAI pueden precisar escisión quirúrgica del tumor antes de que aparezcan daños irreversibles<sup>2,5</sup>.

## Conclusiones

El osteoma de conducto auditivo interno es una lesión rara, pero que debe considerarse en el diagnóstico diferencial de las lesiones vestibulares.

## Bibliografía

1. Plantone D, Renna R, Primiano G, Servidei S. Osteoma of the internal auditory canal. *Intern Med*. 2013;52(7):839.
2. Suzuki J, Takata Y, Miyazaki H, Yahata I, Tachibana Y, Kobayashi T, Kawase T, Katori Y. Osteoma of the internal auditory canal mimicking vestibular schwannoma: case report and review of 17 recent cases. *Tohoku J Exp Med*. 2014;232(1):63-8.
3. Tamir SO, Cyna-Gorse F, Sterkers O. Internal auditory canal osteoma: Case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J*. 2015;94(6):E23-5.
4. Soliva Martínez D, Belda González I, Fernández Iglesias P. Osteoma of the internal auditory canal. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2015;66(6):364-5.
5. Schutt CA, Guo JN, Bagwell KA, Bulsara KR, Malhotra A, Michaelides E. Bilateral osteomas and exostoses of the internal auditory canal. *Am J Otolaryngol*. 2015;36(4):583-6.

# Pseudoquiste de pabellón auricular: una patología poco frecuente

Pseudocyst of the auricle: a rare pathology

## AUTORES

Sarabia Martínez C\* · Orte Aldea C\*\* · Rebolledo Bernad L\*\*

\*Residente de Medicina Familiar y Comunitaria de Centro de Salud Barbastro (Huesca) \*\*Servicio de ORL del Hospital de Barbastro (Huesca).

### RESUMEN

Las deformidades en pabellón auricular debido a colección de líquido (hemático o seroso) ocurren con relativa frecuencia y son normalmente debido a traumatismo previo (como los jugadores de rugby o deporte de contacto como artes marciales) aunque no siempre presentan este antecedente ni la misma evolución. En estos casos debemos valorar otras etiologías como pueden ser el pseudoquiste de pabellón auricular u otoseroma.

El enfoque terapéutico es el drenaje del líquido para evitar una deformidad permanente conocida como "oreja en coliflor", causada por lesión del cartílago.

Este drenaje se realiza normalmente con una pequeña incisión en antihélix y anestesia local en consultas. En los casos de recidiva pese a los drenajes, como ocurre en el pseudoquiste auricular, se debe realizar una exéresis capsular o deroofing de la pared, precisando una mayor incisión. En estos casos es conveniente maximizar la asepsia llevando a cabo el tratamiento en quirófano, evitando así posibles complicaciones infecciosas.

#### PALABRAS CLAVE:

Pseudoquiste auricular, otoseroma, drenaje terapéutico.

### SUMMARY

Pinna deformities due to fluid collection (hematic or serous) occur quite frequently and are usually due to previous trauma (such as rugby players or other contact sports as martial arts) although they do not always carry the trauma precedent nor the same evolution. It is in such cases when we must assess other etiologies such as pinna pseudocyst or otoseroma.

The therapeutic approach is fluid drainage to avoid a permanent deformity known as "cauliflower ear" caused by irreversible cartilage injury.

This drainage is normally performed with a small incision in the antihelix and local anesthesia in the consulting room. In cases of recurrence despite drainage, as occurs in auricle pseudocyst, an excision of the cystic capsule or deroofing must be performed, requiring a larger incision. In these cases, it is convenient to maximize asepsis by carrying out the treatment in the operating room, thus avoiding future infective complications.

#### KEY WORDS:

Pseudocyst of the auricle, pinna seroma, therapeutic drainage.

## Caso Clínico

Presentamos un caso de un varón de 33 años de edad con epilepsia y asma bronquial como antecedentes personales de interés además de fumador habitual.

Es derivado a consultas de Otorrinolaringología por inflamación progresiva e indolora de pabellón auricular derecho de 3 semanas de evolución, no refiriendo éste clara contusión previa.

En la exploración, se veía una tumefacción en antihélix de oído derecho, palpándose una colección fluctuante y blanda, no dolorosa. Liger rubor y calor sin supuración ni lesión en piel. No se palparon adenopatías. Dada la clínica del paciente, fue suficiente con la exploración y no se requirieron pruebas complementarias, procediéndose al tratamiento de ello.

En la primera visita del paciente es tratado como un otohematoma, realizándose drenaje a través de pequeña incisión inferior de antihelix con salida de líquido sero-hemático. Se colocó vendaje compresivo, manteniendo tira de gasa intralesional junto con tratamiento antibiótico y corticoideo oral.

En las sucesivas visitas a consulta, continuaba la colección similar, precisando drenaje en dos ocasiones (Fig. 1). Dada la recurrencia del cuadro, se decidió ingreso para nuevo drenaje ampliando incisión con colocación de gasa y compresión, además de tratamiento endovenoso antibiótico y corticoideo, enfocando el caso como un pseudoquiste de pabellón y programando la exéresis de la pared quística en quirófano, conocido como deroofing de la pared (Fig. 2), evitando así recurrencias.



Figura 1.



Figura 2.



Figura 3.

Una vez realizada la intervención con anestesia local, la anatomía patológica confirmaba condrodermatitis nodular del hélix con cambios degenerativos pseudoquisticos.

En la última revisión, objetivamos buen aspecto del pabellón auricular sin colección y retirándose los puntos de sutura transfixiante. No ha vuelto a presentar el paciente nueva colección en pabellón auricular (Fig. 3).

## Discusión

El otoseroma y pseudoquiste de pabellón auricular son patologías raras y benignas. Son recurrencias de colecciones localizadas en pabellón auricular pese a los drenajes. Se ha visto que además de las aspiración, también puede ser beneficiosa la administración de corticoides locales, siendo el tratamiento definitivo con menor tasa de recurrencia la exéresis capsular o deroofing. Cuando la colección es pequeña y ésta recidiva lentamente, el tratamiento corticoideo local inyectado puede ser un tratamiento adecuado puesto que mejora rápidamente la inflamación, es poco invasivo y presenta pocos efectos adversos, no obstante hay que ampliar los estudios en este aspecto.

En definitiva, el pseudoquiste auricular es una patología poco frecuente que recidiva y muestra buenos resultados a nivel quirúrgico una vez retirada la cápsula quística y realizado vendaje compresivo en la zona.

Pese a que el otohematoma y el pseudoquiste de pabellón auricular pueden presentar clínica similar inicial, el enfoque terapéutico es diferente, debiéndose individualizar cada paciente, procurando el mejor resultado. En este caso, se procedió al tratamiento quirúrgico con exéresis capsular del quiste al haber agotado el manejo conservador, obteniendo en definitiva un buen resultado.

## Bibliografía

1. Sánchez Gallego-Albertos C; Del Castillo Pardo de Vera JL; Burgueño García M. Pseudoquiste auricular. Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial, 2018; 40, (3): 145-146.
2. Parajuli R, Kshetry J. Treatment of Auricular Pseudocyst with Intralesional Steroid: A Study with Short-Term Follow-Up. Clin Cosmet Investig Dermatol. 2020; 14;(13):579-585. doi: 10.2147/CCID.S264755. PMID: 32884320; PMCID: PMC7434566.
3. Lee YJ, Kwon JG, Han HH. Surgical deroofing in the treatment of patients with auricular pseudocyst. Auris Nasus Larynx. 2019;46(4):576-582. doi: 10.1016/j.anl.2018.10.017. Epub 2018 Nov 20. PMID: 30470633.

## Correspondencia

**Dra. Carlota Sarabia Martínez**

C/ Mayor, 22

22436 BENAVENTE DE ARAGÓN (Huesca)

Email: carlotasarabia@gmail.com

# Schwannoma retrofaríngeo: a propósito de un caso

Retropharyngeal schwannoma: case report

## AUTORES

Rebolledo Bernad L\* · De Miguel García F\*\* · Fernández Liesa R\*\* · Roque Taveras L\* · Orte Aldea C\* · Cortizo Vázquez E\*

\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital de Barbastro.

\*\*Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza.

### RESUMEN

Los schwannomas son tumores benignos cuya localización en el espacio retrofaríngeo es extremadamente rara. Suelen ser de crecimiento lento, por lo que dan síntomas tardíos por efecto masa. El tratamiento de elección es la resección quirúrgica radical. Presentamos el caso de una mujer con un schwannoma en pared posterior faríngea, con buena evolución tras la cirugía.

#### PALABRAS CLAVE:

Schwannoma, espacio retrofaríngeo, pared posterior faríngea.

### SUMMARY

Schwannomas are benign tumors whose location in the retropharyngeal space is extremely rare. They are usually slow growing, so they give late symptoms due to mass effect. The treatment of choice is radical surgical resection. We report the case of a woman affected by a schwannoma in the posterior pharyngeal wall, with good outcome after surgery.

#### KEY WORDS:

Schwannoma, retropharyngeal space, pharyngeal posterior wall.

## Introducción

Los schwannomas son tumores mesenquimales benignos derivados de las células de Schwann de la envoltura nerviosa de los nervios periféricos. Suelen ser encapsulados, submucosos y de lento crecimiento, por lo que el diagnóstico tiende a ser tardío<sup>1,2,3,4,5,6,7,8,9</sup>. En general se presentan como una masa aislada, pero se han descrito casos de tumores múltiples asociados a neurofibromatosis<sup>3,6</sup>. Son tumores muy poco frecuentes con una incidencia descrita de 1 de cada 3000 nacimientos<sup>6</sup>. Aparecen en edades comprendidas entre los 20 y 70 años sin predominancia por sexos<sup>2,6</sup>.

Entre el 25 y el 45 % de los schwannomas se presentan en la región de cabeza y cuello, y pueden provenir especialmente de los pares craneales IX, X, XI y XII o del plexo cervical, siendo el nervio vago (X) el origen más común. El espacio parafaríngeo es el lugar más frecuente de aparición, seguido de la cavidad oral, fosa nasal y senos paranasales<sup>1,2,3,5,6,7,8,9,10,11</sup>.

Sin embargo, aquellos que aparecen en el espacio retrofaríngeo son extremadamente raros, ya que dicha región

alberga menos estructuras anatómicas<sup>1,2,3,4,5,7,8,9,11</sup>. Se trata de un espacio medial, limitado por los espacios parafaríngeos lateralmente, la musculatura prevertebral posteriormente, y los músculos constrictores faríngeos anteriormente. Contiene grasa, ganglios linfáticos y fibras nerviosas de los pares craneales IX (glossofaríngeo) y X (vago)<sup>1,4,5,10</sup>.

Su diagnóstico supone un reto ya que en el espacio retrofaríngeo las patologías más frecuentes son abscesos, carótidas internas aberrantes, y tumores, entre ellos las metástasis ganglionares de cáncer de cabeza y cuello los más frecuentes, habiéndose descrito otros como lipomas, linfomas, neuroblastomas y adenomas pleomorfos<sup>1,4,5,10</sup>.

A diferencia de los tumores que asientan en el espacio parafaríngeo que suelen ser asintomáticos, los del espacio retrofaríngeo, aunque tardíamente, suelen provocar signos y síntomas por efecto masa, siendo la sensación de cuerpo extraño faríngeo y la disfagia los síntomas más habituales, seguidos de disnea y disfonía. No suelen presentar clínica de disfunción nerviosa, y la aparición de parestesias o neuralgia es poco común pero sugestiva de malignidad<sup>1,4,5,10</sup>.



Figura 1: Tumoración en pared posterior faríngea izquierda.

## Caso Clínico

Presentamos el caso de una mujer de 47 años con antecedentes de síndrome depresivo y tabaquismo, que consulta por sensación de cuerpo extraño faríngeo de 2 años de evolución con empeoramiento progresivo, sin otra sintomatología asociada.

En la exploración se observa una tumoración retrofaríngea izquierda cubierta por mucosa de aspecto normal, que se extiende desde detrás del paladar blando izquierdo hasta la altura del repliegue aritenopiglótico izquierdo (Fig.1).

Solicitamos una TC cervical con contraste, en la que se observa una tumoración retrofaríngea de consistencia sólida, bien delimitada, de 3,7 x 2 x 1,5 cm, con realce tenue y heterogéneo, que impronta sobre la pared posterolateral de orofaringe e hipofaringe, sugestiva de posible neurofibroma o schwannoma (Fig. 2A).

Se toma una biopsia con anestesia local, con resultado anatomopatológico de músculo esquelético, glándula salival y mucosa faríngea con áreas de fibrosis y leve inflamación crónica.

En la RM aparece una lesión ovalada y ligeramente lobulada de unos 3,5 x 2 x 1,5 cm en región retrofaríngea izquierda de borde bien definido, isointensa en T1 y ligeramente hiperintensa en T2, con realce intenso y uniforme tras la administración de contraste (Fig. 2B).

Se decide tratamiento quirúrgico, llevando a cabo exéresis de la tumoración mediante abordaje transoral. En el postoperatorio la paciente presenta intolerancia oral por odinofagia durante 5 días, introduciendo después la dieta oral de forma progresiva, así como leve enfisema subcutáneo cervical con extensión mediastínica que evolucionó favorablemente (Fig. 3).

El resultado anatomopatológico fue de Schwannoma con patrón de crecimiento nodular y patrón histológico fusocelular. Inmunofenotipo: expresa marcadores S-100 intensamente, Ki-67 4% y expresión focal de EMA.

Durante las revisiones sucesivas en la exploración de orofaringe se apreciaba tejido de granulación por dehiscencia de la sutura, que se ha ido resolviendo espontáneamente, y la paciente se encuentra asintomática.

En la última TC de control 6 meses después de la intervención no se observan signos de recidiva ni de resto tumoral.

## Discusión

El diagnóstico definitivo se basa en el estudio histológico con análisis de inmunohistoquímica<sup>2</sup>.



Figura 2A: TC cervical donde se observa la tumoración retrofaringea en cortes axial (izquierda), coronal (centro) y sagital (derecha).

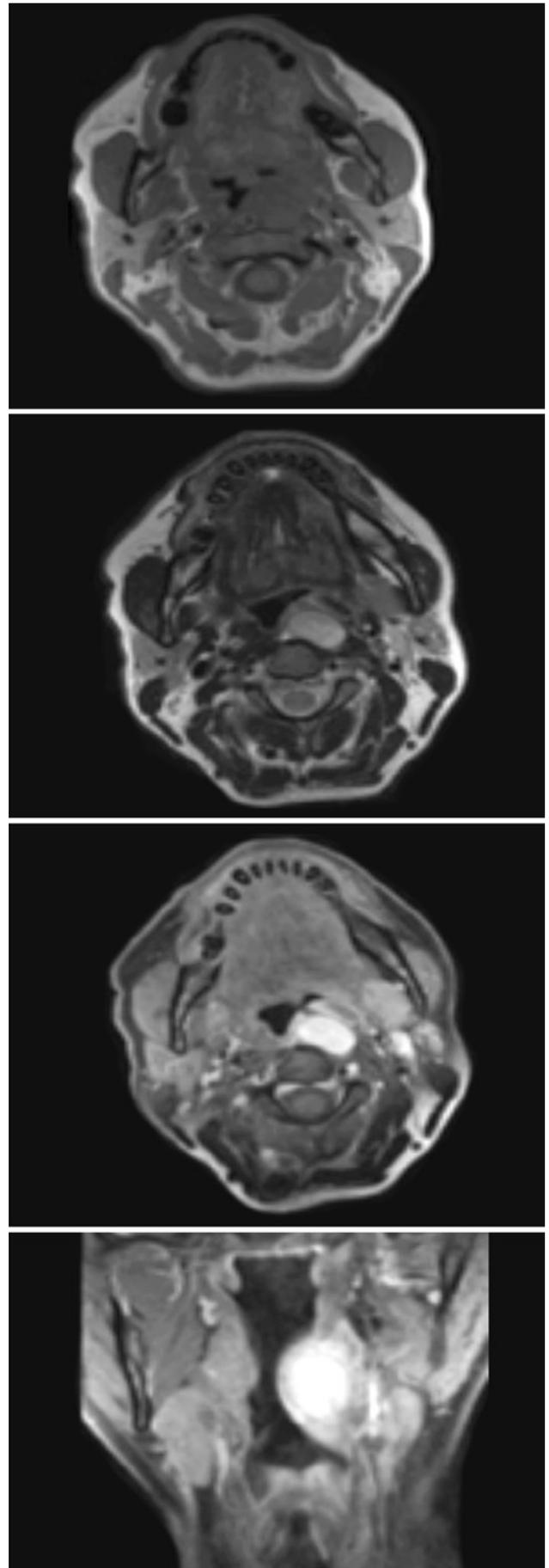


Figura 2B: RM cervical donde aparece tumoración retrofaringea isointensa en T1, hiperintensa en T2 y que realza tras inyección de gadolinio (de izquierda a derecha, cortes axiales), y corte coronal tras inyección de gadolinio (derecha).

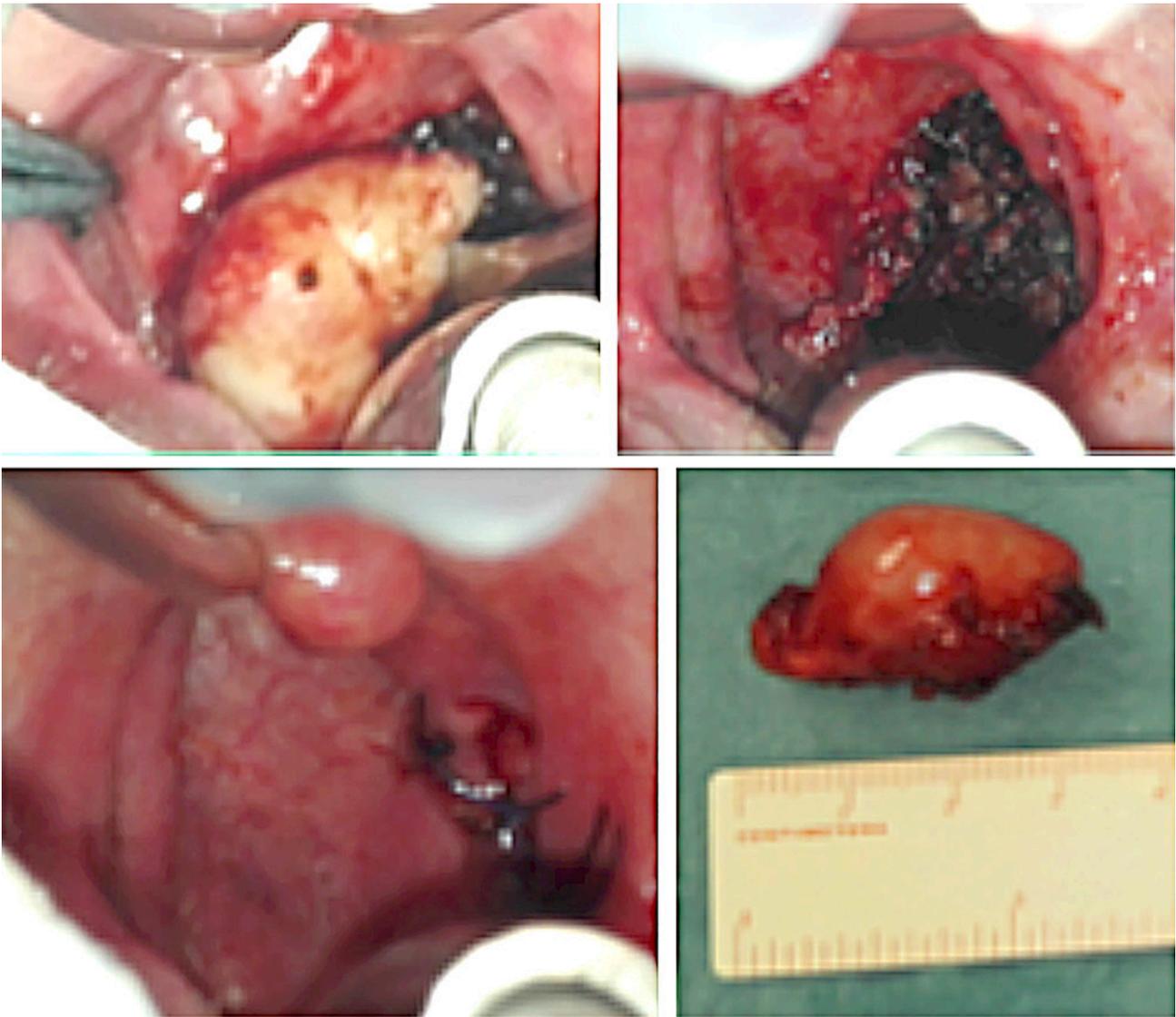


Figura 3: Intervención quirúrgica, observando de izquierda a derecha, exéresis del tumor, lecho de resección, sutura y pieza.

Para su evaluación y diagnóstico diferencial son clave la TC con contraste yodado y la RM con gadolinio. La RM es especialmente útil en su diagnóstico, siendo habitual una intensidad baja en T1 y alta en T2, con realce heterogéneo con gadolinio. Se podría plantear una biopsia diagnóstica cuando las pruebas de imagen excluyan un origen vascular de la lesión y ésta sea accesible mediante un abordaje mínimamente invasivo<sup>14,5,10</sup>.

El tratamiento del schwannoma se basa en la resección quirúrgica radical con preservación del nervio, lo que suele ser posible ya que los schwannomas están separados de las fibras nerviosas por una cápsula fibrosa. Sin embargo, en ocasiones el tamaño o la localización del tumor no permiten una escisión completa o fuerzan a sacrificar el nervio<sup>13,4,5,7,12</sup>. Se han descrito diversos abordajes quirúrgicos, entre ellos el transoral, transcervical o transparotídeo, que a veces precisan ser combinados<sup>14,5,12</sup>. Mientras el abordaje

transoral se suele emplear para lesiones más pequeñas, el abordaje cervical se emplea en tumores más extensos, aunque actualmente la cirugía robótica también permite la escisión de tumores más grandes vía transoral con menor morbilidad<sup>5,4,12</sup>. Como alternativa terapéutica, la radioterapia se reserva como tratamiento paliativo, para enfermedad residual tras la cirugía o en pacientes inoperables<sup>6</sup>.

Cuando la resección es completa, las recidivas son raras. El seguimiento debería basarse en la exploración clínica, y realizar pruebas de imagen en caso de sospecha de recidiva<sup>4</sup>. En pacientes inoperables o irreseccables en los que se opta por la observación y aquellos en los que tras la cirugía queda un resto tumoral deben ser vigilados de manera más estrecha ya que aunque remota, existe la posibilidad de malignización, siendo ésta más frecuente en pacientes afectados de neurofibromatosis<sup>5,10,11</sup>.

## Conclusiones

Los Schwannomas localizados a nivel del espacio retrofaríngeo son muy infrecuentes. El diagnóstico de sospecha se establece por sus características en las pruebas de imagen, especialmente en la RM. Su tratamiento electivo es quirúrgico.

## Bibliografía

1. Gallo S, Bandi F, Maffioli MP, Giudice M, Castelnuovo P, Fazio E, Karligkiotis A. Retropharyngeal Space Schwannoma: A Rare Entity. *Iran J Otorhinolaryngol*. 2017;29(95):353-357.
2. Abou-Elfadl M, Lrhazi S, Mahtar M, Roubal M. Unusual retropharyngeal mass. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2015;132(2):115-6.
3. Raimondo L, Garzaro M, Mazibrada J, Pecorari G, Giordano C. Plexiform schwannoma of the posterior pharyngeal wall in a patient with neurofibromatosis 2. *Ear Nose Throat J*. 2015;94(3):E17-9.
4. Righini CA, Atallah I. A retropharyngeal mass. Diagnosis: Antoni A type schwannoma. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2015;132(1):57-8.
5. Kumagai M, Endo S, Shiba K, Masaki T, Kida A, Yamamoto M, Sakata H. Schwannoma of the retropharyngeal space. *Tohoku J Exp Med*. 2006;210(2):161-4.
6. Malone JP, Lee WJ, Levin RJ. Clinical characteristics and treatment outcome for nonvestibular schwannomas of the head and neck. *Am J Otolaryngol*. 2005;26(2):108-12.
7. Huang CM, Leu YS. Schwannoma of the posterior pharyngeal wall. *J Laryngol Otol*. 2002;116(9):740-1.
8. Haraguchi H, Ohgaki T, Hentona H, Komatsuzaki A. Schwannoma of the posterior pharyngeal wall: a case report. *J Laryngol Otol*. 1996;110(2):170-1.
9. Triaridis C, Tsalighopoulos MG, Kouloulas A, Vartholomeos A. Posterior pharyngeal wall schwannoma (case report). *J Laryngol Otol*. 1987;101(7):749-52.
10. Hsieh CY, Hsiao JK, Wang CP. Retropharyngeal schwannoma excised through a transoral approach: a case report. *Kaohsiung J Med Sci*. 2006;22(9):465-9.
11. Singh B, Ramjettan S, Maharaj TP, Ramsaroop R. Schwannoma of the posterior pharyngeal wall. *J Laryngol Otol*. 1995;109(9):883-5.
12. Gungadeen A, Lisseter R, Manickavasagam J, Paleri V. Transoral robotic resection of a large schwannoma in the retropharyngeal space. *J Laryngol Otol*. 2016;130(4):401-3.