

O.R.L. ARAGÓN

REVISTA OFICIAL DE LA SOCIEDAD ARAGONESA DE O.R.L.

DIRECTORA

María José Naya Gálvez

SECRETARIA DE REDACCIÓN

Lourdes Alonso Alonso

COMITÉ DE REDACCIÓN

José M.^a Abad Royo
Ignacio Alfonso Collado
Rafael Fernández Liesa
Isabel Adiego Leza
Pablo Vela Gajón
Fernando García Curdi
Yolanda Lois Ortega

JUNTA DIRECTIVA SAORL

Presidenta

María José Naya Gálvez

Vicepresidenta

Isabel Adiego Leza

Tesorería

José Jordán Castillo

Secretaría

Leonor María Calatayud Lallana

Vocal Zaragoza

María del Mar Munuera Jurado

Vocal Huesca

Silvia Herrera Tolosana

Vocal Teruel

Guillermo Gil Grasa

Edición: *Sociedad Aragonesa de O.R.L.*
P.º Ruiseñores, 2. 50006 Zaragoza. Tel. 976 38 81 11
Dirección Internet: <http://www.saorl.org>

Maquetación: ITEM Creación Gráfica

Impresión: ITEM Creación Gráfica

Depósito Legal: Z-1735-98

ISSN.: 1576-9127

Todas las contribuciones originales son evaluadas y sometidas a un riguroso proceso de revisión por pares, antes de ser aceptadas, por revisores expertos designados por los Editores.

Los artículos contenidos en esta revista no podrán ser reproducidos, ni total ni parcialmente, sin el previo permiso escrito del autor.

Normas Editoriales

ORL ARAGÓN es la publicación oficial de la Sociedad Aragonesa de Otorrinolaringología y Patología Cérvico-Facial. La revista publica artículos sobre todos aquellos aspectos relacionados con la otorrinolaringología y las enfermedades cérvico-faciales, así como con sus especialidades afines. Incluye de forma regular: artículos sobre investigación clínica o básica, comunicaciones breves, revisiones, artículos o comentarios editoriales y cartas al editor.

Todas las contribuciones originales son evaluadas y sometidas a un riguroso proceso de revisión por pares, antes de ser aceptadas, por revisores expertos designados por los Editores. El envío de un artículo a ORL ARAGÓN implica que es original y que no ha sido previamente publicado, ni está siendo evaluado para su publicación en otra revista.

Se aceptará el envío de manuscritos por correo postal, que deberán ir dirigidos al Director de SAORL (COMZ. Paseo Ruiseñores, 2. 50006 Zaragoza), acompañados de una carta en la que se especifique el tipo de artículo que se envía, que es original y que no ha sido previamente publicado, total o parcialmente, ni está siendo evaluado para su publicación en otra revista.

Los trabajos admitidos para su publicación quedarán en propiedad de la Sociedad Aragonesa de Otorrinolaringología, y su reproducción, total o parcial, deberá ser convenientemente autorizada. Todos los autores de las aportaciones originales deberán enviar por escrito la carta de cesión de estos derechos, una vez que el artículo haya sido aceptado.

ÉTICA

Los autores firmantes de los artículos aceptan la responsabilidad definida por el Comité Internacional de Editores de Revistas Médicas (en www.icmje.org y *Rev Esp Cardiol.* 2004;57:538-56).

Los trabajos que se envíen a ORL ARAGÓN para su evaluación deben haberse elaborado respetando las recomendaciones internacionales sobre investigación clínica (Declaración de Helsinki de la Asociación Médica Mundial [www.wma-net/e/policy]) y con animales de laboratorio (Sociedad Americana de Fisiología).

CONFLICTO DE INTERESES

Cuando exista alguna relación entre los autores de un artículo y cualquier entidad pública o privada, de la que pudiera derivarse un potencial conflicto de intereses, esta circunstancia debe ser comunicada en una carta remitida aparte al Editor.

Los autores deberán cumplimentar y enviar el documento específico de conflicto de intereses por correo ordinario o fax. Este documento puede obtenerse en www.doyma.es/otorrino.

INSTRUCCIONES PARA LOS AUTORES

Todos los manuscritos se adecuarán a las normas de publicación. Para asegurarse de ello, los autores deben completar la siguiente lista, marcando con una cruz cada uno de los apartados después de haber comprobado su veracidad. Se entiende que el primer firmante de la publicación se responsabiliza de la normativa y que el resto de los autores conocen, participan y están de acuerdo con el contenido del manuscrito.

Artículos originales

Presentación del manuscrito:

- Tendrá una extensión máxima de 5.000 palabras, contando desde la página frontal hasta el final y excluyendo las tablas.
- El manuscrito seguirá el siguiente orden: a) página frontal; b) resumen estructurado en español y palabras clave; c) resumen estructurado en inglés y palabras clave; d) cuadro de abreviaturas en español e inglés; e) texto; f) bibliografía; g) pies de figura; h) tablas, e i) figuras.
- Las páginas se numerarán consecutivamente comenzando por la página frontal.
- Si se remite por correo, se adjuntarán 4 copias del artículo y 4 juegos independientes de figuras y tablas. Estará mecanografiado a doble espacio, con márgenes de 2,5 cm.

1. Página frontal.

En la página frontal se indicará:

- Título en español, en inglés y abreviado (menos de 80 caracteres).
- Nombre y apellido de los autores en este orden: primer nombre, inicial del segundo nombre si lo hubiere, primer apellido. Se podrá incluir el segundo apellido, preferiblemente separado con un guión.
- Centro de procedencia (departamento, institución, ciudad y país) y fuente de financiación, en su caso.
- Dirección postal completa del autor a quien debe dirigirse la correspondencia, teléfono, fax y dirección electrónica.
- Se especificará el número total de palabras del manuscrito (contando desde la página frontal al final y excluyendo las tablas).

2. Resumen estructurado.

- Tendrá una extensión máxima de 250 palabras.
- Estará estructurado en cuatro apartados: a) introducción y objetivos; b) métodos; c) resultados, y d) conclusiones.
- Será comprensible por sí mismo y no contendrá citas bibliográficas ni abreviaturas (excepto las correspondientes a unidades de medida).
- Incluirá entre 3 y 10 palabras clave al final, derivadas del Medical Subject Headings (MeSH) de la National Library of Medicine. Disponible en: www.nlm.nih.gov/mesh/meshhome.html.
- Se incluirá traducción al inglés del resumen y de las palabras clave, con idéntica estructuración.

3. Texto.

- Constará de los siguientes apartados: a) introducción; b) métodos, c) resultados; d) discusión, y e) conclusiones, cada uno de ellos adecuadamente encabezados. Se utilizarán subapartados debidamente subtítulos para organizar cada uno de los apartados.
- Se utilizará un máximo de 6 abreviaturas convenientemente explicadas la primera vez, y se presentarán también en forma de cuadro en una hoja aparte.
- Las abreviaturas de las unidades de medida serán las recomendadas en *Rev Esp Cardiol.* 2004;57:538-56.
- Los agradecimientos figurarán a final del texto.

4. Bibliografía.

- Las referencias bibliográficas se citarán en secuencia numérica, en formato superíndice, de acuerdo con su orden de aparición en el texto.
- No se incluirán entre las citas bibliográficas comunicaciones personales, manuscritos o cualquier dato no publicado. Todo esto, sin embargo, podrá estar incluido, entre paréntesis, dentro del texto.
- Se podrán citar *abstracts* de menos de 2 años de antigüedad, identificándolos con [*abstract*] colocado después del título.
- Para la referencia a revistas médicas se utilizarán las mismas abreviaturas que aparecen en el Index Medicus: List of Journals Indexed. (Disponible en: www.ncbi.nlm.nih.gov/entrez/citmach_help.html#Journalists).
- La bibliografía se remitirá como texto estándar, nunca como notas al pie. No se aceptarán los códigos específicos de los programas de gestión bibliográfica.

- El estilo y la puntuación de las referencias seguirá el formato que se recomienda en Rev Esp Cardiol. 2004;57:538-56. A continuación se dan unos ejemplos de los formatos de citas bibliográficas utilizados con mayor frecuencia:

Revista médica

Lista de todos los autores. Si el número de autores es superior a 6, se incluirán los seis primeros y se añadirá la partícula latina "et al" después de una coma:

Mígliosi V, Modamio-Hoybjor S, Moreno-Pelayo MA, Rodríguez-Ballesteros M, Villamar M, Tellería D, et al. Q829X, a novel mutation in the gene encoding otoferlin (OTOF), is frequently found in Spanish patients with prelingual non-syndromic hearing loss. J Med Genet. 2002;39:502-6.

Capítulo en libro

Autores, título del capítulo, editores, título del libro, ciudad, editorial y páginas:

Suárez Nieto C, Díaz Fernández C, Anatomía del sistema vestibular. En: Bartual Pastor J, Pérez Fernández N, editores. El sistema vestibular y sus alteraciones. Barcelona: Masson; 1998. p. 53-63.

Libro

Se citarán las páginas específicas:

Tos M. Manual of middle ear surgery. 1st ed. NewYork: Thieme Medical Publishers; 1991. p. 44.

Material electrónico

Artículo de revista en formato electrónico:

Abod S. Quality improvement initiative in nursing homes: the ANA acts in an advisory role. Am J Nurs [serie en Internet], 2002 Jun [citado 12 Ago 2002];102(6): [aprox. 3 p.]. Disponible en:

<http://www.nursingworld.org/AJN/2002AVawatch.htm>.

5. Figuras.

- Las figuras correspondientes a gráficos y dibujos se mandarán en formato JPEG con una resolución no inferior a 300 dpi.
- Las gráficas, símbolos, letras, etc. serán de tamaño suficiente para poderse identificar claramente al ser reducidas (no se aceptarán rotulaciones manuales). Los detalles especiales se señalarán con flechas, utilizando para éstas y para cualquier otro tipo de símbolos el trazado de máximo contraste respecto a la figura.
- Si el envío se realiza por correo, se remitirán mediante reproducción de alta calidad en impresora láser o chorro de tinta o a través de reproducción fotográfica, utilizando el color negro para líneas y texto. El tamaño mínimo será de 13 x 18 cm. Estarán ordenadas con números arábigos de acuerdo con su orden de aparición en el texto.
- Para las figuras que exijan alta calidad (imágenes de TC o RM, piezas microscópicas o macroscópicas, lesiones o alteraciones cutáneas, etc.) se utilizará: a) si es en blanco y negro, reproducción fotográfica en papel brillante (alto contraste), y b) si es en color, fotografía de alta calidad o preferiblemente diapositiva original acompañada de 3 copias en papel en color.
- En el reverso de las figuras se señalará la parte superior mediante una flecha y se incluirá el número de orden y título del trabajo, omitiendo el nombre de los autores.
- Los pies de figuras se incluirán en una hoja aparte. Al final se identificarán las abreviaturas empleadas por orden alfabético.
- Las figuras no incluirán datos que permitan conocer la procedencia del trabajo o la identidad del paciente. Las fotografías de personas estarán realizadas de manera que éstas no sean identificables, o bien en la documentación enviada al editor constará el consentimiento de su uso por parte de la persona fotografiada.

6. Tablas.

- Estarán clasificadas con números romanos, de acuerdo con su orden de aparición en el texto.

- Cada tabla se escribirá a doble espacio en una hoja aparte.
- Incluirán un título en su parte superior y en la parte inferior se describirán las abreviaturas empleadas por orden alfabético.
- El contenido será autoexplicativo y los datos que incluyan no figurarán en el texto ni en las figuras.

Comunicaciones breves

- Sólo se aceptarán artículos que incluyan un mínimo de 3 pacientes y un máximo de 6 autores.
- Tendrán una extensión máxima de 2.000 palabras, contando desde la página frontal hasta el final y excluyendo las tablas.
- Contendrán un máximo de 3 figuras y 2 tablas.
- La página frontal, bibliografía, figuras y tablas se especificarán de acuerdo con las normas ya descritas para los artículos originales.
- El texto constará de los siguientes apartados: a) página frontal; b) resumen en español (menos de 150 palabras) no estructurado, con entre 3 y 5 palabras clave; c) traducción al inglés del resumen y de las palabras clave; d) introducción; e) métodos; f) resultados; g) discusión; h) bibliografía; i) pies de figuras; j) tablas y k) figuras.
- Si se envía por correo postal, se adjuntarán 3 copias de la comunicación y 3 juegos independientes de figuras y tablas. El manuscrito estará mecanografiado a doble espacio, dejando márgenes de 2,5 cm.

Casos clínicos

- Incluirán 1 ó 2 pacientes.
- Tendrán una extensión máxima de 800 palabras, contando desde la página frontal al final.
- Contendrán un máximo de 2 figuras.
- El título (en español e inglés), los autores (máximo 4), centro de procedencia, dirección y figuras se especificarán de acuerdo con las normas ya descritas para los artículos originales.
- Si se remiten por correo postal, se adjuntarán 3 copias del texto y de las imágenes. El manuscrito estará mecanografiado a doble espacio, dejando márgenes de 2,5 cm.

Imágenes en otorrinolaringología y cirugía de cabeza y cuello

- El título (en español e inglés) contendrá menos de 8 palabras.
- Los autores (máximo 3), centro de procedencia, dirección y figuras se especificarán de acuerdo con las normas ya descritas para los artículos originales.
- El texto explicativo no superará las 250 palabras y contendrá la información de mayor relevancia, sin citas bibliográficas ni pies de figuras. Todos los símbolos contenidos en las imágenes se explicarán adecuadamente en el texto.
- Contendrán un máximo de 3 figuras.
- Si se remiten por correo postal, se adjuntarán 3 copias del texto y de las imágenes. El manuscrito estará mecanografiado a doble espacio, dejando márgenes de 2,5 cm.

Cartas al Director

- Las Cartas al Director estarán destinadas, preferentemente, a discutir sobre algún artículo reciente de ORL ARAGÓN.
- No deberán exceder las 500 palabras de texto y 5 referencias.

SOPORTE INFORMÁTICO

- Si se envía el manuscrito por correo postal, deberá remitirse, simultáneamente, su grabación completa en soporte informático.
- Todos los apartados del manuscrito deberán ir en un mismo archivo con excepción de las figuras, que pueden guardarse en archivos separados.
- Las figuras se enviarán simultáneamente en versión impresa y electrónica. En el caso de las fotografías, se mandarán en formato JPEG con una resolución no inferior a 300 dpi.

Sialometaplasia necrotizante no ulcerativa de la nasofaringe: una presentación atípica

Non-ulcerative necrotising sialometaplasia of the nasopharynx: an atypical presentation

AUTORES

Sevil-Serrano C* · Mariño-Sánchez F* · García-Cosío M** · Santamaría-Gadea A*

*Servicio de Otorrinolaringología. **Servicio de Anatomía Patológica. Hospital Universitario Ramón y Cajal, Madrid, España

RESUMEN

La sialometaplasia necrotizante (SN) es un trastorno inflamatorio benigno poco frecuente que afecta a las glándulas salivales menores. Por lo general, se presenta como una lesión ulcerada dolorosa, aunque puede presentarse como una lesión nodular. En este caso clínico, se presenta un hombre de 77 años con diagnóstico inicial de carcinoma de células escamosas infiltrante del rostrum esfenoidal derecho. El paciente se sometió a cirugía nasosinusal endoscópica para reseccionar la lesión. El examen final de la lesión reveló una SN. Según nuestro conocimiento, este es el primer caso de SN nasofaríngea no ulcerativa descrito en la literatura. Esta patología no requiere tratamiento específico y las lesiones generalmente desaparecen en pocas semanas. Sin embargo, puede imitar una patología maligna tanto clínica como histológicamente, principalmente carcinoma epidermoide o mucoepidermoide, y puede conducir a un tratamiento quirúrgico agresivo.

PALABRAS CLAVE:

AA

SUMMARY

Necrotising sialometaplasia (NS) is a rare benign inflammatory disorder affecting the minor salivary glands. It usually presents as a painful ulcerated lesion, although it may present as a nodular lesion. In this case report, a 77-year-old man with initial diagnosis of infiltrating squamous cell carcinoma of the right sphenoidal rostrum were reported. The patient underwent endoscopic nasosinusal surgery to resect the lesion. The final examination of the lesion revealed a NS. According to our knowledge, this is the first case of non-ulcerative nasopharyngeal SN described in the literature. This condition does not require specific treatment and the lesions usually disappear within a few weeks. However, may mimic malignant pathology both clinically and histologically, mainly epidermoid or mucoepidermoid carcinoma, and may lead to aggressive surgical treatment.

KEY WORDS:

AA

Introducción

Necrotising sialometaplasia (NS) is a rare benign inflammatory disorder affecting the minor salivary glands. It usually presents as a painful ulcerated lesion, although it may present as a nodular lesion (1). It does not require specific treatment and the lesions usually disappear within a few weeks. This condition may mimic malignant pathology both clinically and histologically, mainly epidermoid or mucoepidermoid carcinoma, and may lead to aggressive surgical treatment (2). We present the first case of non-ulcerative nasopharyngeal SN described in the literature.

Case report

We present the case of a 77-year-old man with a past medical history of urogenital neoplasia who presented to the clinic with nasal respiratory insufficiency. Physical examination revealed a diffuse thickening of the right choanal ridge (Fig 1A) with extension towards the nasopharynx. Biopsies were performed with a diagnosis of infiltrating squamous cell carcinoma. CT and MRI were performed

(Fig 1B) and showed an irregular thickening of the posterior nasopharyngeal mucosa without associated bone erosion, respecting the retropharyngeal space. The patient underwent endoscopic nasosinusal surgery to resect the lesion. Right sphenoidotomy, posterior septectomy, resection of the right sphenoidal rostrum and excision of the nasopharyngeal mucosa were performed. Intraoperative biopsies were performed during surgery and reported as squamous cell carcinoma.

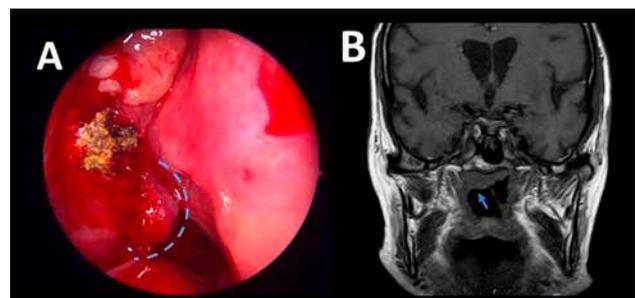


Figure 1: (A) Intraoperative image after medial turbinectomy. Thickening of the right choanal ridge (blue line shows the lesion). (B) MR T1 sequence. Irregular thickening of the mucosa of the posterior wall of the nasopharynx without associated bone erosion (blue arrow).

Delayed examination of the lesion revealed marked squamous metaplasia (Fig 2a) at the level of the lining epithelium and chorionic glands, as well as an intense chronic inflammatory infiltrate (Fig 2B) and focally an acute inflammatory infiltrate, which led to the observation of atypia with regenerative characteristics. Focally, areas of ischaemic necrosis were observed (Fig 2C) in the reparative process, with hyaline vessel walls without viable cellularity. A glandular component with preserved architecture was also identified (Fig 2D). These findings, considered in conjunction with the anterior incisional biopsy, were consistent with a diagnosis of SN.

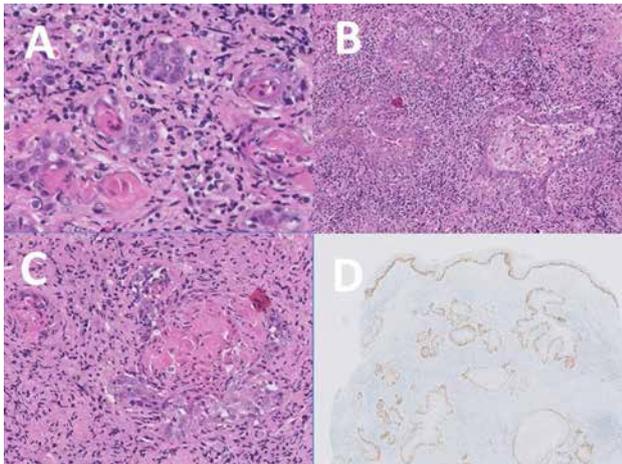


Figure 2: (A) Haematoxylin Eosin x40. Squamous metaplasia and cellular atypia. (B) Haematoxylin Eosin x10. Intense chronic inflammatory infiltrate. (C) Haematoxylin Eosin x20. Areas of necrosis. (D) p40 stain x10. Glandular component with preserved architecture.

Discussion

The features of atypia of the metaplastic epithelium and the low frequency of presentation of SN in the nasopharynx (3), only 3 cases in the literature, may cause problems in the differential diagnosis with squamous cell carcinoma. Furthermore, there is no known case of non-ulcerative SN in the nasopharynx, and this case report is the first to be described in the literature.

Although necrotizing sialometaplasia can occur anywhere in the upper aerodigestive tract, the most commonly described location is the palate (4). Its unusual location in the nasal cavity and nasopharynx may be due to the excellent vascularisation of the nasal cavity and nasopharynx, as an environment of ischaemia appears to be associated with the development of NS. The aetiology of SN is not well known, but authors point to an injury of the blood vessels by a biological or physicochemical factor that produces ischaemic changes and leads to an infarction of the acini of the salivary gland. This is followed by necrosis, inflammation and repair processes that induce metaplasia, ductal changes and, finally, scarring (5).

Repair of the ductal epithelium and acini by squamous metaplasia with pseudoepitheliomatous hyperplasia can be mistaken microscopically for squamous cell carcinoma or mucoepidermoid carcinoma (2). Therefore, identification of preserved normal glandular architecture is key to diagnosis. On the other hand, there are cases where SN can coexist

with carcinoma (6), which can further complicate the diagnosis as the incisional biopsy may not be representative of the entire lesion.

Immunohistochemistry may aid in the diagnosis and panels have been proposed that include myoepithelial markers, basement membrane markers, E-cadherin and various cytokeratins (7).

NS does not require treatment and usually resolves within a few weeks (7). Because of the uncommonness of this condition and because its confusion with malignant entities may lead to overtreatment, it is important to be recognised by clinicians and pathologists.

References

1. Néri JDSV, Silva VPD, Ramalho LMP, De Castro LP, Santos JND. Necrotizing sialometaplasia: a case report of a non-ulcerated histopathological presentation. *Dermatol Online J.* 2020 Dec 15;26(12):13030/qt3274n86z. PMID: 33423426.
2. Muller S, Tilakaratne WM. Update from the 5th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumors: Tumours of the Oral Cavity and Mobile Tongue. *Head Neck Pathol.* 2022 Mar;16(1):54-62. doi: 10.1007/s12105-021-01402-9. Epub 2022 Mar 21. PMID: 35312982; PMCID: PMC9018914.
3. Kumar S, Qayyum A, Bhat N. Necrotizing sialometaplasia of the nasopharynx with parapharyngeal extension: Case report and brief review of the literature. *Ear Nose Throat J.* 2014 Dec;93(12):E25-7. PMID: 25531850.
4. León X, Szafranska J, Méndez JE. A case of necrotizing sialometaplasia. *Acta Otorrinolaringol Esp (Engl Ed).* 2020 Sep-Oct;71(5):328-329. English, Spanish. doi: 10.1016/j.otorri.2019.06.003. Epub 2019 Sep 30. PMID: 31582173.
5. Garcia NG, Oliveira DT, Faustino SE, Azevedo AL. Necrotizing sialometaplasia of palate: a case report. *Case Rep Pathol.* 2012;2012:679325. doi: 10.1155/2012/679325. Epub 2012 Aug 22. PMID: 22957289; PMCID: PMC3432339
6. D. J. Lee, H. K. Ahn, E. S. Koh, Y. S. Rho, and H. R. Chu, "Necrotizing Sialometaplasia accompanied by adenoid cystic carcinoma on the soft palate," *Clinical and Experimental Otorhinolaryngology*, vol. 2, no. 1, pp. 48–51, 2009
7. Carlson DL. Necrotizing sialometaplasia: a practical approach to the diagnosis. *Arch Pathol Lab Med.* 2009 May;133(5):692-8. doi: 10.5858/133.5.692. PMID: 19415943.

Corresponding author

Dr. Alfonso Santamaría-Gadea

Unidad de rinología y base de cráneo

Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario

Ramón y Cajal. Madrid, España

Dirección: M-607, Km9,100, 28034 Madrid

Email: asantamariagadea@gmail.com

Cáncer de laringe en pacientes no fumadores. A propósito de un caso

Laryngeal cancer in non-smoking patients

AUTORES

Romo Urgilés JD · García Fernández R · Fernández-Cotero Santiago-Juárez M · Gil Lerín L · Munuera Jurado MM · López Vázquez MA
Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa, Zaragoza, España.

RESUMEN

Introducción: En países desarrollados se ha presentado una disminución en el consumo de tabaco durante las últimas dos décadas, sin embargo, el cáncer de laringe sigue siendo prevalente y existen múltiples informes que sugieren que existe un subconjunto emergente de pacientes que se presenta sin exposición al tabaco o al alcohol.

Métodos: Se presenta el caso de un paciente de 50 años remitido por disfonía. Sin hábitos tóxicos, no fumador, sin hábito enólico. Trabaja en industria con exposición a productos químicos para producción de fertilizante. Diagnosticado de carcinoma escamoso de laringe, infiltrante G1, T4N1M0, P16 negativo. Se realiza tratamiento mediante laringectomía total más doble vaciamiento ganglionar cervical.

Discusión: Los pacientes no fumadores con cáncer de laringe muestran un perfil epidemiológico diferente: son marcadamente más jóvenes (<45 años) en el momento del diagnóstico, tienen tumores glóticos en mayor proporción y tienen menor relación con el VPH. Se debe tomar en cuenta las exposiciones ocupacionales en estos pacientes, valorando el contacto con carcinógenos conocidos.

Conclusiones: El presente caso impresiona debido a la edad del paciente y a la ausencia de exposición a los factores de riesgo clásicos del cáncer de laringe como el tabaco y el alcohol. Sin embargo, coincide con las características de los pacientes con cáncer de laringe en no fumadores mencionados en la literatura.

PALABRAS CLAVE:

AA

SUMMARY

Introduction: In developed countries there has been a decrease in tobacco consumption during the last two decades, however, laryngeal cancer remains prevalent and there are multiple reports that suggest that there is an emerging subset of patients without exposure to tobacco or alcohol.

Methods: The case of a 50-year-old patient referred for dysphonia is presented. Without toxic habits, non-smoker, without alcohol habit. Works in industry with exposure to chemicals for fertilizer production. Diagnosed with squamous cell carcinoma of the larynx, infiltrating G1, T4N1M0, P16 negative. Treatment is performed by total laryngectomy plus double cervical lymph node dissection.

Discussion: Non-smoking patients with laryngeal cancer show a different epidemiological profile: they are markedly younger (<45 years) at the time of diagnosis, have glottic tumors in a higher proportion and have a lower relationship with HPV. Occupational exposures must be taken into account in these patients, assessing contact with known carcinogens.

Conclusions: The present case is impressive due to the patient's age and the absence of exposure to the classic risk factors for laryngeal cancer such as tobacco and alcohol. However, it coincides with the characteristics of patients with laryngeal cancer in non-smokers mentioned in the literature.

KEY WORDS:

AA

Introducción

El consumo de tabaco es uno de los factores de riesgo más importantes en el desarrollo de carcinoma escamoso de laringe, ya que el 95% de pacientes tienen antecedente de tabaquismo. En países desarrollados se ha presentado una disminución en el consumo de tabaco durante las últimas dos décadas, sin embargo, el cáncer de laringe sigue siendo prevalente y existen múltiples informes que sugieren que existe un subconjunto emergente de pacientes que se presenta sin los factores de riesgo tradicionales: tabaco y alcohol. Este grupo de pacientes tienen más probabilidades de tener <45 años en el momento del diagnóstico (OR 4,1, $p = 0,001$), de tener tumores glóticos (OR 2,4, $p = 0,003$) y muestran menor relación con el Virus del Papiloma Humano (VPH) (menos del 6%). Además, el porcentaje de pacientes femeninas es significativamente mayor entre los no fumadores (7-25,3%). 1-2

El carcinoma de células escamosas en individuos no fumadores parece ser distinto del carcinoma de células escamosas de cabeza y cuello tradicional. Los estudios han revelado varias mutaciones genéticas y perfiles epigenómicos únicos, pero no una etiología genética definitiva. Brennan et al. realizaron un estudio de los perfiles de metilación de 528 pacientes con carcinoma espinocelular de células escamosas encontrando un subgrupo atípico con silenciamiento génico generalizado relacionado con la hipermetilación del ADN (CIMP) que estaba compuesto por más no fumadores y era 98% negativo para VPH.³

En otros estudios también se ha observado un enriquecimiento de la firma genética para la respuesta de IFN- γ y los ligandos de puntos de control inmunológico, como PD-L1, en tumores de cabeza y cuello en pacientes no fumadores, que suelen estar en relación con infecciones virales. Se ha relacionado, además, con una mayor incidencia de muta-

ciones en el gen que codifica la caspasa 8 (CASP8). Se ha planteado la hipótesis de que el microbioma oral también tiene un papel importante en la patogénesis del cáncer de cabeza y cuello en pacientes no fumadores.³

Por otra parte, la exposición ocupacional a ciertas sustancias ha sido estudiada en relación al cáncer de laringe. La evidencia de una asociación causal es sólida en el caso de exposición a sílice (OR 1,7; IC95 %, 1,1-13,0), los humos de ácidos inorgánicos fuertes (principalmente ácido sulfúrico), los hidrocarburos aromáticos policíclicos (HAP) (OR 1,5; IC95%, 1,1-2,2) y vapores de pintura (OR 3,3; IC 95% 1,3-8,1). Se ha sugerido que varios otros agentes aumentan el riesgo de cáncer de laringe, incluidos el polvo de madera, polvo de cemento (OR 3,9; IC del 95%; 1,0-14,7), los gases de escape de los motores diésel y los disolventes orgánicos (OR 3,2; IC 95%, 1,6-6,6). Se encontraron riesgos significativamente mayores entre los trabajadores del sector de la construcción (OR: 4,6; IC 95% 1,8-11,6) y del sector de la industria y mecánica (OR: 5,0; IC 95% 1,4-18,0). Se ha informado de un mayor riesgo para otros grupos ocupacionales con exposición a carcinógenos conocidos (cocineros, camareros, fontaneros, zapateros).^{4,5,6}

Un estudio realizado en Alemania investigó también el papel de exposiciones ocupacionales, encontrando que la exposición a HAP aumenta significativamente el riesgo (OR = 5,2; IC 95% = 1,6-17,1), incluso ajustando por tabaquismo y alcohol, con una clara relación dosis-respuesta. Este estudio refuerza la clasificación de los HAP como factor de riesgo ocupacional para el cáncer de laringe. Estos compuestos podrían estar presentes en ciertas materias primas o como contaminantes accidentales en procesos que involucren combustibles fósiles o biomasa tratada térmicamente.⁷

Caso Clínico

Se presenta el caso de un paciente de 50 años remitido por disfonía intermitente de 6 meses de evolución. No fumador, no hábito enólico. Trabaja en industria con exposición a productos químicos para producción de fertilizante. En la exploración se objetiva un engrosamiento de ambas cuerdas vocales con parcheado leucoplásico. Se

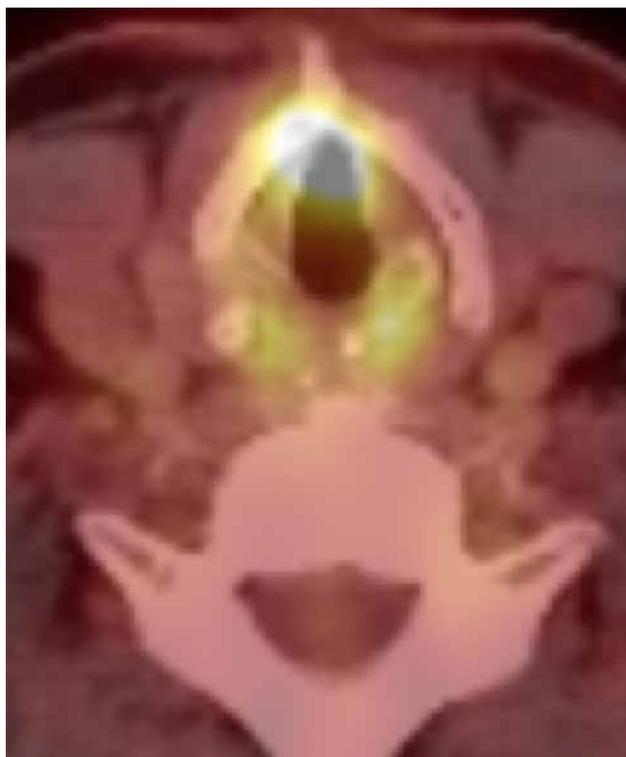


Figuras 1 y 2: Evolución de la lesión entre la primera y segunda biopsia.

toma muestra para cultivo y biopsia. El cultivo es negativo y el resultado anatomopatológico de la primera biopsia indica focos de displasia leve-moderada. Ante empeoramiento clínico, se toma nueva biopsia con resultado de carcinoma escamoso infiltrante G1, P16 negativo.

En estudio de extensión mediante PET TAC se describe neoplasia laríngea con intensa actividad metabólica, que afecta a ambas cuerdas vocales, comisura anterior y a lámina derecha del cartílago tiroides, progresando hacia región subglótica sobre la línea media. Al menos una adenopatía cervical muy sugestiva de metástasis en nivel IIa derecho (T4 N1 MO).





Figuras 3 y 4: Lesión laríngea en PET TAC.

Ante los resultados se ofrece laringectomía total más vaciamiento ganglionar cervical (VGC) bilateral como primera opción terapéutica.



Figura 5: Laringectomía total + VGC bilateral

Discusión

El presente caso impresiona debido a la edad del paciente (50 años) y a la ausencia de exposición a los factores de riesgo clásicos del cáncer de laringe como el tabaco y el alcohol. Sin embargo, coincide con las características de los pacientes con cáncer de laringe en no fumadores mencionados en la literatura: tendencia a la aparición en pacientes más jóvenes, mayor probabilidad de tumores glóticos y sin relación al VPH (P16 negativo). Además, interesa destacar la exposición ocupacional a múltiples productos químicos.^{1,2,3}

Conclusiones

Los pacientes no fumadores con cáncer de laringe muestran un perfil epidemiológico diferente, de elevado interés debido al aumento emergente de casos en este subgrupo.^{1,2,3}

Se debe tomar en cuenta las exposiciones ocupacionales en estos pacientes, valorando el contacto con carcinógenos conocidos.^{4,5,6}

Estas características epidemiológicas y clínico-patológicas deben ser consideradas para su estudio, diagnóstico y tratamiento.

Bibliografía

- Malm I-J, Rooper LM, Bishop JA, Ozgursoy SK, Hillel AT, Akst LM, et al. Molecular and immunologic analysis of laryngeal squamous cell carcinoma in smokers and non-smokers. *Am J Otolaryngol* [Internet]. 2019;40(2):213–7. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.amjoto.2018.11.009>
- Shoffel-Havakuk H, O'Dell K, Johns MM 3rd, Reder L, Popova M, Halperin D, et al. The rising rate of nonsmokers among laryngeal carcinoma patients: ¿Are we facing a new disease? *Laryngoscope* [Internet]. 2020;130(3):E108–15. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1002/lary.28067>
- Huang Q, Guo Y, Shen Y, Hsueh C-Y, Tao L, Zhang M, et al. Epidemiological, clinical, and oncological outcomes of non-alcohol drinking and non-smoking laryngeal squamous cell carcinoma patients: A distinct entity. *Technol Cancer Res Treat* [Internet]. 2022;21. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1177/15330338221133690>
- Elci OC, Akpınar-Elci M. Occupational exposures and laryngeal cancer among non-smoking and non-drinking men. *Int J Occup Environ Health* [Internet]. 2009;15(4):370–3. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1179/oeh.2009.15.4.370>
- Tran Q, Maddineni S, Arnaud EH, Divi V, Megwalu UC, Topf MC, et al. Oral cavity cancer in young, non-smoking, and non-drinking patients: A contemporary review. *Crit Rev Oncol Hematol* [Internet]. 2023;190(104112). Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.critrevonc.2023.104112>
- Boffetta P, Donato F. Occupational risk factors of laryngeal cancer. En: *Occupational Cancers*. Cham: Springer International Publishing; 2020. p. 193–204.
- Becher H, Ramroth H, Ahrens W, Risch A, Schmezer P, Dietz A. Occupation, exposure to polycyclic aromatic hydrocarbons and laryngeal cancer risk. *Int J Cancer*. 2005 Sep 1;116(3):451–7. doi: 10.1002/ijc.21049. PMID: 15810012.

Correspondencia

Dr. Juan Diego Romo Urgilés

Secretaría del Servicio de Otorrinolaringología
Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa
Av. San Juan Bosco, 15. Zaragoza, España.
Email: juandiegoru@hotmail.com

Carcinoma adenoide quístico laríngeo. A propósito de un caso

AA [REDACTED]

AUTORES

García-Morales B · Rodríguez Rodríguez FA · Álvarez Morales NA · Sánchez Rodríguez S · Acuña Macchi JM · Maltrana García JA · Pérez Delgado L
Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario Miguel Servet. Zaragoza

RESUMEN

El carcinoma adenoide quístico es un tumor raro, localizado generalmente en la cavidad bucal, que deriva de las glándulas salivares menores, ubicadas en la submucosa. Rara vez aparece en la laringe, representando menos del 1% de los tumores laríngeos.

El principal tratamiento de este tipo de tumores es la escisión quirúrgica, porque estos tumores son resistentes a la radiación. Presentamos el caso de una mujer con un tumor adenoide quístico subglótico que se manifestó con disnea y estridor y fue tratado mediante laringectomía parcial.

PALABRAS CLAVE:

AA [REDACTED]

SUMMARY

AA [REDACTED]

KEY WORDS:

AA [REDACTED]

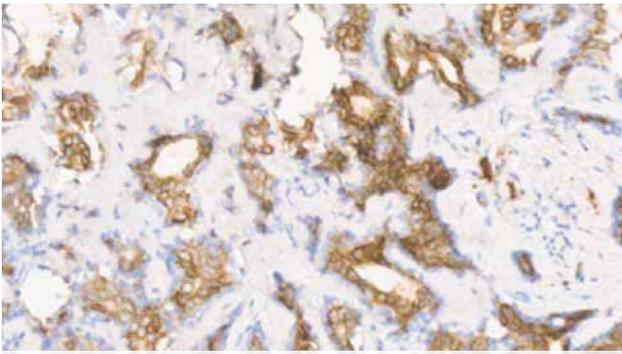
Introducción

El carcinoma adenoide quístico (ACC) es un tumor poco común, derivado de las glándulas salivales menores, que se asienta más frecuentemente en la cavidad bucal. Representa entre un 0,07 y un 0,25% de los tumores laríngeos, afectando más frecuentemente al área subglótica (2/3 de los casos), seguido de las áreas de supra glótica y glótica. Debido a su lenta progresión, y a su desarrollo submucoso profundo, el ACC se presenta con síntomas poco claros e inespecíficos. El síntoma más común en pacientes con ACC es la disnea, porque cuando aparecen los síntomas, el tumor ya se encuentra localmente avanzado y obstruye parte de la vía aérea. No existe consenso sobre su algoritmo de tratamiento, pero la actitud más aceptada es la quirúrgica.

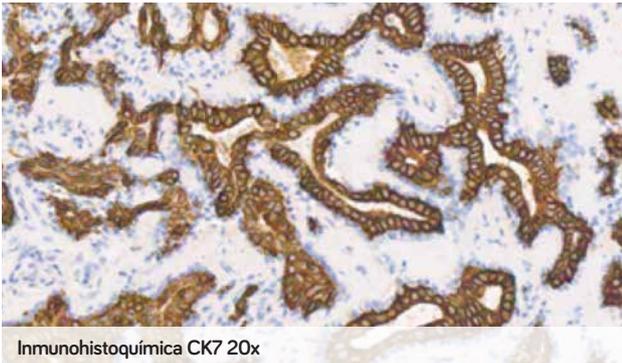
Caso Clínico

Presentamos el caso de una mujer de 64 años, que acude a urgencias por un cuadro de disnea y estridor respiratorio en contexto de un cuadro catarral. Se administra en urgencias Actocortina 300mg i.v. y Urbason 80mg i.v., tras lo cual la paciente se estabiliza. En la fibroscopia se aprecia lesión de aspecto quístico dependiente de CVI, que estenosa parcialmente la vía aérea y a la fonación queda bajo la cuerda.





Inmunohistoquímica Ckit 20x



Inmunohistoquímica CK7 20x

Se decide exéresis de la masa en quirófano, que se realiza en varios bloques debido a la mala exposición. La anatomía patológica informa de carcinoma adenoide quístico de patrón tubular con escasas áreas sólidas, con marcadores C-Kit SOX 10 y Citoqueratina 7 positivos, y p40 y p63 positivo en las células mioepiteliales.

En el TAC postquirúrgico se parecía pequeña lesión en tercio posterior de cuerda vocal izquierda, que podría corresponder a la base de la lesión polipoide reseca. Se evidencia una adenopatía sospechosa en área II izquierda. Se realiza un PET que informa de asimetría del metabolismo en cuerdas vocales, con mayor actividad en tercio posterior de la izquierda, aunque con intensidad leve, en relación con su AP, sería compatible con carcinoma adenoide quístico de bajo grado.

Se realiza laringectomía parcial frontolateral por laringofisura y vaciamiento ganglionar funcional izquierdo. La anatomía patológica informa de mucosa laríngea sin evidencia de neoplasia y 10 ganglios linfáticos, ninguno de ellos infiltrado.

Se presenta en el comité de tumores de cabeza y cuello de nuestro hospital, donde se decide seguimiento. La paciente un año después se encuentra libre de enfermedad.

Discusión

Más del 95% de los tumores laríngeos son carcinomas escamosos (1,2). Frecuentemente se presentan con disfonía, y la gran mayoría están relacionados con el hábito tabáquico y el consumo de alcohol (2).

El carcinoma adenoide quístico (ACC) es un tumor epitelial maligno poco común que surge de las glándulas exocrinas (3) y representa <1% de todas las neoplasias malignas de cabeza y cuello (4,5) y no se asocia a ningún factor de riesgo (4). La localización laríngea del ACC es rara y ocurre en 0,07 a 0,25% de todos

los tumores laríngeos, siendo más frecuente en glándulas salivales sublinguales y submandibulares. Aparecen más frecuentemente en subglotis (64%), seguido de supraglois y glotis (1,5). Al localizarse por debajo del epitelio, se presentan mayormente como una masa submucosa difícil de detectar de forma temprana (5,6), aunque es posible el crecimiento exofítico y polipoide (4).

Se caracteriza por ser un tumor de crecimiento lento, con una alta tasa de recurrencia, que a menudo causa disnea y ronquera (5). En el CAQ las metástasis cervicales son raras (10-15% de los casos) (4,5). El pronóstico depende de las metástasis a distancia y la recurrencia local y la invasión perineural. El ACC muestra propensión a la invasión perineural, y, por tanto, los pacientes pueden experimentar dolor como síntoma tardío de la enfermedad (4). Las metástasis a distancia ocurren en el 35 a 50% de los casos, siendo el pulmón el lugar más frecuente donde asientan (4,5). Frecuentemente se dan de forma tardía, lo que hace que las altas tasas de supervivencia a los 5 años se reduzcan drásticamente a los 10 y 15 años.

Aunque en la actualidad no existe un consenso para el tratamiento del ACC de laringe, el International Head and Neck Scientific Group (IHNSG) recomienda la cirugía con intención curativa y aconseja el seguimiento a largo plazo (4,5).

Conclusión

La presentación del carcinoma adenoide quístico en laringe es muy rara, siendo su localización más frecuente las glándulas salivales. Frecuentemente tiene un crecimiento submucoso, que hace que la clínica aparezca de forma tardía. El tratamiento más aceptado es la cirugía. Presenta un alto riesgo de invasión perineural, por lo que la tasa de recurrencia es alta, y se recomienda seguimiento a largo plazo.

Bibliografía

1. Gamez Perez, E. et al. (2021) 'Carcinoma adenoideo quístico laríngeo. Caso clínico', *Panorama Cuba y Salud*, 16(1), pp. 102-104.
2. Lois, Y García-Curdi, F Artal, R Ágreda, B López, J Gil, G Vela, P Vallés, H. Carcinoma adenoide quístico localizado en supraglotis. (2018) *O.R.L. ARAGON*; 21 (1) pp 12-13
3. Ricciardiello, F. et al. (2018) 'Adenoid cystic carcinoma of the larynx in a 70-year-old patient: A case report', *Oncology Letters* 16(3) pp 2783-2788
4. Dumitru, C. and Balica, N. (2023) 'Subglottotracheal adenoid cystic carcinoma in a 16-year-old female—a case report', *Medicina*, 59(6), p. 1140.
5. Escayola, J, Carrera, L, Hernández Gaspar, R., Díaz Agero, P., Lobato, S. and Villasante, C. (1994). Carcinoma adenoide quístico. A propósito de un caso con supervivencia muy prolongada. *Arch Bronconeumol* 30 (1),pp. 514-516
6. Pino Rivero V, Pantoja Hernández CG, González Palomino A, Trinidad Ramos G, Pardo Romero G, Marcos García M, Pereda Tamayo JM, Blasco Huelva A. (2018). Adenoid cystic carcinoma of the larynx-hypopharynx. A case report and review of the literature. *Anales otorrinolaringológicos ibero-americanos*, 33(4) pp 339-45.

De la cavidad nasal al sistema nervioso central: hemiparesia en sinusitis frontal

From the nasal cavity to the central nervous system: hemiparesis in frontal sinusitis

AUTORES

Rodríguez Rodríguez FA · Álvarez Morales NA · García Morales B · Sánchez Rodríguez S · Acuña Macchi JM · Pérez Delgado L
Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza.

RESUMEN

La sinusitis frontal es el cuadro predisponente más frecuente del empiema subdural. Presentamos el caso de un paciente de 25 años que acude al servicio de urgencias por aparición súbita de hemiparesia izquierda de predominio crural, hipoestesia en hemicuerpo izquierdo y rigidez de nuca, en el contexto de infección de vía aerodigestiva superior. El TC de urgencia revela extensa sinusopatía bilateral junto con una colección subdural interhemisférica parasagital derecha que precisó intervención quirúrgica urgente junto con Neurocirugía, llevando a cabo una antrostomía maxilar bilateral, etmoidectomía bilateral y DRAFT I bilateral junto con craneotomía bifrontal y evacuación de la colección purulenta. El empiema subdural es una complicación intracraneal de las sinusitis poco frecuente, pero potencialmente grave. Precisa un tratamiento urgente puesto que puede llegar a ser letal hasta en un 8 % de los casos pese al tratamiento médico adecuado, describiéndose secuelas hasta en un 40 % de los casos. Siendo fundamental un abordajemultidisciplinar, que incluya la valoración conjunta por parte de los servicios de Neurocirugía y ORL.

PALABRAS CLAVE:

Sinusitis frontal, empiema, hemiparesia, rinología.

SUMMARY

Frontal sinusitis is the most common predisposing condition for subdural empyema. We present the case of a 25-year-old patient who presented to the emergency department for sudden onset of left hemiparesis, predominantly crural, hypoaesthesia in the left hemibody and nuchal rigidity, in the context of an upper airway infection. The emergency CT scan revealed extensive bilateral sinusopathy together with a right parasagittal interhemispheric subdural collection that required urgent surgical intervention in conjunction with Neurosurgery, with bilateral maxillary antrostomy, bilateral ethmoidectomy and bilateral DRAFT I together with bifrontal craniotomy and evacuation of the purulent collection. Subdural empyema is a rare but potentially serious intracranial complication of sinusitis. It requires urgent treatment as it can be lethal in up to 8 % of cases despite adequate medical treatment, with sequelae described in up to 40 % of cases. A multidisciplinary approach is essential, including joint assessment by the neurosurgery and ENT services.

KEY WORDS:

Frontal sinusitis, empyema, hemiparesis, rhinology.

Introducción

El empiema subdural (ESD) es una colección purulenta intracraneal localizada en el espacio que se sitúa entre la capa interna de la duramadre y la membrana externa de la aracnoides. La sinusitis es el cuadro predisponente más común, siendo el responsable en aproximadamente el 70% de los casos y siendo los senos frontales los más frecuentemente involucrados. Existe una predominancia en varones (3:1) durante la adolescencia y juventud 1,2. Por ello, si bien la incidencia clínica es baja, los médicos deben tener un alto índice de sospecha de infecciones intracraneales en presencia de síntomas neurológicos focales y enfermedad de los senos nasales 3.

Caso Clínico

Presentamos el caso de un paciente de 25 años que acude al servicio de urgencias por aparición súbita de hemiparesia izquierda de predominio crural, hipoestesia en hemicuerpo izquierdo y rigidez de nuca, en el contexto de infección de vía aerodigestiva superior de unos 4 días de evolución. La TC de urgencia (Fig. 1) revela extensa sinuso-

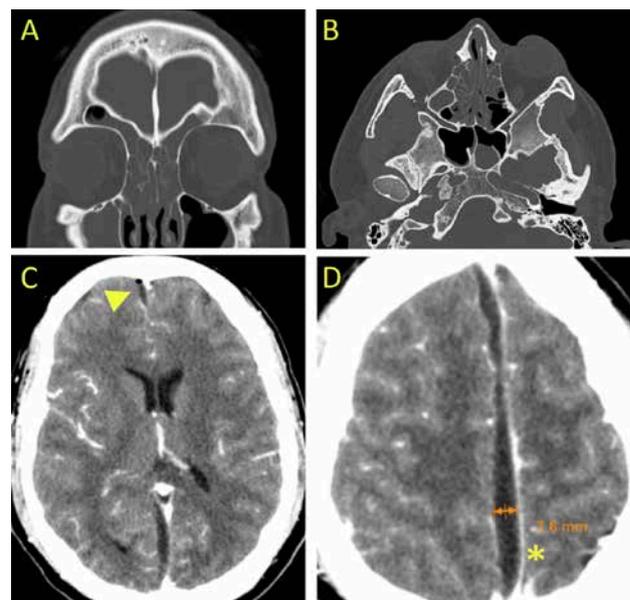


Figura 1: A-B. Niveles hidroaéreos en senos frontales y maxilar izquierdo, ocupación de celdillas etmoidales y densidad heterogénea en seno maxilar derecho. No se demuestra defecto óseo. C-D. Colección subdural interhemisférica parasagital derecha de 7,6 mm de espesor (asterisco amarillo), hipodensa, con burbujas aéreas en la región más anterior de la colección (Flecha amarilla), sugestivo de empiema subdural.

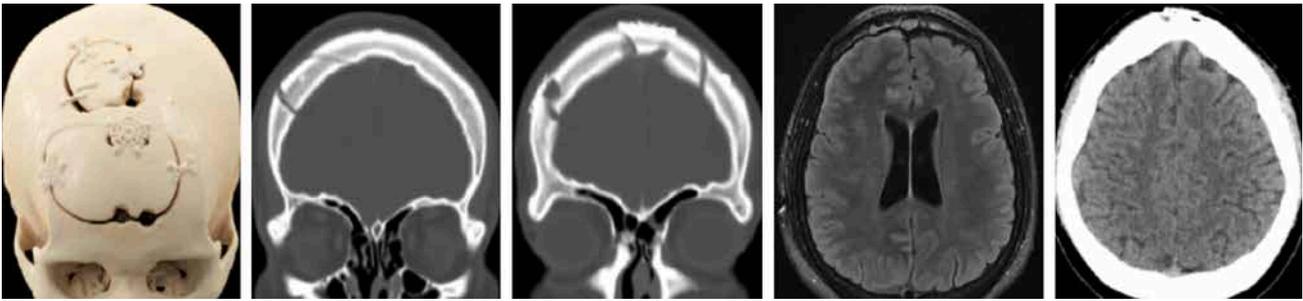


Figura 2: TC reconstrucción 3D: craneotomías frontal y parietal; 2-3. Senos frontales, celdillas etmoidales y senos maxilares bien ventilados; 4. RM secuencia T2 FLAIR: mínima persistencia de realce dural sin colecciones asociadas y sin complicaciones isquémicas asociadas; 5. TC axial: no se identifican colecciones extraaxiales ni realces patológicos tras inyección de contraste.

patía bilateral junto con una colección subdural interhemisférica parasagital derecha. Se decide intervención quirúrgica urgente junto con Neurocirugía, llevando a cabo una antrastomía maxilar bilateral, etmoidectomía bilateral y DRAFT I bilateral. Neurocirugía, por otro lado, llevó a cabo craneotomía bifrontal y evacuación de la colección purulenta (Fig. 2). Tras 2 días en UCI el paciente evolucionó favorablemente por lo que pudo ser trasladado a planta. A pesar de ello, 4 semanas después, a pesar de mejoría clínica persistía en las pruebas de imagen de control ESD, por lo que requirió nueva craneotomía parietal para redrenaje del ESD persistente. Los cultivos, que fueron positivos para *S. anginosus*, tardaron 8 semanas en negativizarse manteniéndose tratamiento con Meropenem y Linezolid. Tras 2 meses, el paciente fue dado de alta con una mejoría neurológica completa de la hemiparesia sin presentar focalidad.

Discusión

El empiema subdural es una complicación intracraneal poco frecuente de las sinusitis, pero potencialmente grave. En los países occidentales, debido al diagnóstico y tratamiento precoz, aparece con una incidencia aproximada del 1-2% de los casos de sinusitis 2.

En cuanto a la relación de la sinusitis frontal con complicaciones del sistema nervioso central (SNC), el empiema subdural se asocia con un rápido deterioro clínico acompañado de profundos déficits neurológicos secundarios, en comparación con otras complicaciones intracraneales como el absceso cerebral que se asocia con un curso más indolente y de progresión más lenta. La diferencia se debe principalmente a la capacidad de la infección de propagarse rápidamente en el espacio subdural, causando un efecto masa extenso en el cerebro 3.

Siempre que se sospeche una sinusitis complicada es necesario un diagnóstico por imagen para descartar complicaciones supurativas intracraneales pudiendo emplear bien TC o bien RM. No obstante, la RM con gadolinio ha demostrado ser superior a la TC para descubrir complicaciones intracraneales, con una sensibilidad de un 93% frente a un 63%. A pesar de ello aunque, en muchas ocasiones, por su mayor disponibilidad, se realice inicialmente una TC para el diagnóstico inicial, es la RM la técnica más sensible y específica para el seguimiento de estos pacientes 2,4.

El ESD supone una complicación grave que precisa un tratamiento urgente. Puede llegar a ser letal hasta en un 8 % de los casos pese al tratamiento médico adecuado, describiéndose secuelas hasta en un 40% de los casos, siendo las más frecuentes parestias y crisis convulsivas. La aparición

de estas secuelas esta correlacionada directamente con la duración de los síntomas antes del diagnóstico y con el tiempo transcurrido hasta el inicio del tratamiento 1,4.

El tratamiento de elección es médico-quirúrgico, se basa en la craneotomía urgente para drenaje de la colección asociado a cirugía endoscópica funcional de los senos paranasales con el fin de eliminar la enfermedad en dicho foco y restablecer la correcta ventilación. A su vez se requiere antibioterapia de amplio espectro durante 4-8 semanas según cultivos 5.

Puesto que el ESD es una complicación poco frecuente pero potencialmente muy grave, es fundamental una sospecha clínica precoz y un adecuado diagnóstico por imagen para optimizar el tratamiento. Del mismo modo, es necesario un abordaje multidisciplinar, que incluya la valoración conjunta por parte de los servicios de Neurocirugía y ORL 6.

Bibliografía

1. Bustos B RO, Pavéz M PA, Bancalari M BJ, Miranda A RM, Escobar S HR. Empiema subdural como complicación de sinusitis [Subdural empyema secondary to sinusitis]. *Rev Chilena Infectol.* 2006 Mar;23(1):73-6.
2. Herrero, A., San Martín, I., Moreno, L., Herranz, M., García, J.C., & Bernaola, E.. (2011). Empiema subdural secundario a sinusitis: descripción de un caso pediátrico. *Anales del Sistema Sanitario de Navarra*, 34(3), 519-522.
3. Niehaus MT, Krape KN, Quinn SM, Kane BG. Frontal sinusitis complicated by a brain abscess and subdural empyema. *Radiol Case Rep.* 2018 Mar 7;13(2):456-459. doi: 10.1016/j.radcr.2018.02.003. PMID: 29682134; PMCID: PMC5906865.
4. Ray K, Chu J, Durrani MI. Subdural Empyema Secondary to Severe Paranasal Sinusitis. *Cureus.* 2022 Nov 2;14(11):e31024. doi: 10.7759/cureus.31024.
5. Raguso G, Cornale N, Rebelo R, Molteni G. Pediatric Sinogenic Subdural Empyema: Case Report and Operative Technique. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2023 Sep;75(3):2460-2466. doi: 10.1007/s12070-023-03754-w. Epub 2023 Apr 19. PMID: 37636655; PMCID: PMC10447687.
6. Tall A, Ba MC, Beketi A, Sy A, Loum B, Thiam AB, Diallo BK, Ndiaye IC, Wane A, Diouf R, Diop EM. Empyème sous-dural compliquant une sinusite frontale aiguë. A propos de 4 cas [Subdural empyema complicating acute frontal sinusitis. Four cases report]. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord).* 2005;126(2):121-6. French. PMID: 16180353.

Lesiones nasosinusales por abuso de cocaína

Nasal and sinus lesions due to cocaine abuse

AUTORES

Gil Lerín L · García Fernández R · Romo Urgilés JD · Fernández-Cotero Santiago-Juárez M · Tejero Cavero M · Alfonso Collado JI

Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa, Zaragoza, España

RESUMEN

La cocaína es una droga psicoestimulante y altamente adictiva que causa graves lesiones en las mucosas nasales, conocidas como lesiones destructivas de la línea media (CIMDL). La vasoconstricción e isquemia producen necrosis, perforación septal, infecciones y deformidades. El diagnóstico diferencial es complejo y requiere descartar enfermedades autoinmunes. Para un tratamiento efectivo, es esencial el cese de consumo; es fundamental una buena higiene nasal con lavados nasales y pomadas hidratantes llegando a la necesidad en ocasiones de tratamiento con antibióticos, corticoides y, en casos severos, de cirugía reconstructiva.

PALABRAS CLAVE:

AA

SUMMARY

Cocaine is a psychostimulant and highly addictive drug that causes severe injury to the nasal mucosa, known as destructive midline lesions (CIMDL). Vasoconstriction and ischemia lead to necrosis, septal perforation, infections and deformities. The differential diagnosis is complex and requires ruling out autoimmune diseases. For effective treatment, drug abstinence is essential; good nasal hygiene with nasal washes and moisturizing ointments is fundamental, sometimes requiring treatment with antibiotics, corticosteroids and, in severe cases, reconstructive surgery.

KEY WORDS:

AA

Introducción

La cocaína es una droga psicoestimulante muy potente y adictiva que se extrae de las hojas de la planta de coca (*Erythroxylum coca*). Existen diferentes vías de administración y dado que la inhalación es la forma más común de consumo la mucosa nasosinusal se ve afectada con gran frecuencia¹.

La fisiopatología de las lesiones nasales asociadas al consumo de cocaína es compleja y multifactorial. Los principales factores incluyen la vasoconstricción, que reduce el flujo sanguíneo y provoca isquemia y necrosis tisular, así como la citotoxicidad directa sobre las células de la mucosa nasal. Esto desencadena apoptosis celular, activa el sistema inmunitario y provoca una inflamación crónica, lo que incrementa el riesgo de infecciones y complicaciones bacterianas secundarias. (1,2,3)

En casos más avanzados, esto puede llevar a la destrucción de estructuras cartilaginosas y óseas que pueden llegar a ser irreversibles. Estas lesiones características se denominan lesiones destructivas de la línea media inducidas por cocaína (CIMDL, del inglés cocaine-induced midline destructive lesions).

Para poder hablar de CIMDL se requiere la presencia de al menos dos de los siguientes signos: perforación septal, destrucción de la pared lateral nasal, afectación o perforación del paladar duro (5)

En las primeras fases, los pacientes con este tipo de afección suelen presentar síntomas como congestión nasal, epistaxis, hiposmia o anosmia y formación de costras en las fosas nasales. A medida que avanza, pueden aparecer infecciones recurrentes y dolor intenso facial. En casos más graves, se observan úlceras en la mucosa del tabique nasal que pueden llegar a perforarse, deformidades visibles en la estructura nasal, como el colapso del tabique o la nariz en "silla de montar", junto con la estenosis de las fosas nasales. (5,6)

La lesión más comúnmente observada en estos pacientes es la destrucción de la porción cartilaginosa del tabique nasal, mientras que la afectación de la estructura ósea, que incluye el vómer y la lámina perpendicular del etmoides, se presenta en etapas más avanzadas de la enfermedad. Además de la perforación del tabique nasal, se observan frecuentemente lesiones necrotizantes difusas, acompañadas de formación de costras y sobreinfecciones bacterianas. (4,6)

La afectación del paladar duro, los cornetes nasales y las paredes mediales del seno maxilar y del etmoides se da en un menor porcentaje de pacientes, generalmente en casos más severos. (5,7)

Además de las lesiones nasales, estas pueden progresar hacia estructuras adyacentes, como la órbita, provocando la destrucción de la lámina papirácea, e incluso pueden afectar el espacio intracraneal, siendo éstas poco frecuentes. (5,7)

Es fundamental llevar a cabo un diagnóstico diferencial con enfermedades autoinmunes, especialmente considerando la granulomatosis con poliangitis (GPA), la cual presenta síntomas locales similares y resulta positiva para ANCA. Esto complica el diagnóstico, ya que muchos pacientes con CIMDL pueden presentar ANCA positivos (hasta un 83%) (8) siendo estos útiles para ayudar en el diagnóstico y no tanto para monitorizar la progresión o remisión de la enfermedad ni para evaluar su gravedad. Además no se ha demostrado que tener un resultado ANCA positivo este asociado a una mayor gravedad de la enfermedad, hallazgos de laboratorio más elevados ni hallazgos radiológicos específicos.

Existe la posibilidad de que se vuelvan negativos tras un cese sostenido del consumo de cocaína. En el caso de que persista la positividad de los ANCA habiendo descartado el consumo de cocaína con repetidos análisis, esto puede ser un signo de que el ANCA inducido por la cocaína se vuelva autónomo, impulsando la patogénesis de la enfermedad, pudiendo ser indicación temprana de posible progresión a GPA. (6,8)

Además, se deben considerar otras condiciones como el linfoma de células T/NK, la sarcoidosis, el lupus, enfermedades vasculares, tumores y diversas infecciones. Dado que el diagnóstico diferencial es amplio, es crucial identificar correctamente la enfermedad para poder brindar un tratamiento adecuado. (5)

El diagnóstico final se fundamenta principalmente en la recopilación de una historia clínica detallada y en la confirmación del consumo de cocaína, que se verifica preferentemente a través de análisis de orina, dado que esta sustancia puede permanecer en el organismo entre 48 y 72 horas. (6) Además, se deben realizar serologías, análisis de marcadores de autoinmunidad (con especial énfasis en los anticuerpos anti-neutrófilos citoplasmáticos, ANCA), biopsias y estudios de imagen. (8)

En las muestras de anatomía patológica se suele observar lesiones inespecíficas como inflamación crónica, tejido granulomatoso con infiltrado inflamatorio mixto (neutrófilos, eosinófilos, células plasmáticas), vasculitis, microtrombosis. Una característica que podría ser más específica podría ser la apoptosis masiva (2,6)

Para abordar eficazmente las consecuencias del consumo de cocaína, es fundamental que el paciente suspenda su uso por completo, ya que de lo contrario, los tratamientos pierden efectividad. En este contexto, se recomienda iniciar con terapias conservadoras que incluyen antibióticos y corticoides, junto con técnicas de limpieza y desbridamiento de costras y tejidos dañados para controlar sobre todo las infecciones locales. Además, existen intervenciones quirúrgicas dirigidas a corregir daños estructurales más severos como el cierre de las perforaciones ya sean septales o velo-palatinas, las cuales suelen reservarse para pacientes en una fase estable y que han confirmado su abstinencia. (6,7)

Caso Clínico 1

Mujer de 40 años, con antecedentes de consumo habitual de cocaína, acude a consulta médica por insuficiencia respiratoria nasal, que se acompaña de sequedad nasal, epistaxis recurrente, edema periorcular y cefaleas.

Durante la exploración, se observa en la rinoscopia anterior vestibulitis, presencia de costras necróticas y rino-rrhea purulenta. La nasofibroscoopia revela una cavidad nasal desestructurada, sin identificación clara de las estructuras anatómicas, con una gran perforación del tabique nasal y abundantes costras acompañadas de rino-rrhea purulenta. En el examen de la orofaringe no se aprecian alteraciones, el paladar se encuentra íntegro, y no hay comunicación con las fosas nasales. La movilidad ocular se mantiene conservada, la paciente niega diplopía aunque se observa edema periorcular.

Inicialmente el abordaje terapéutico se lleva a cabo con antibióticos, corticoides, lavados y pomadas nasales, y se establece un seguimiento en consultas para estudio y evaluación continua. Se solicitaron análisis de sangre con marcadores de autoinmunidad y serologías, cuyos resultados fueron negativos. Se tomaron muestras para estudio

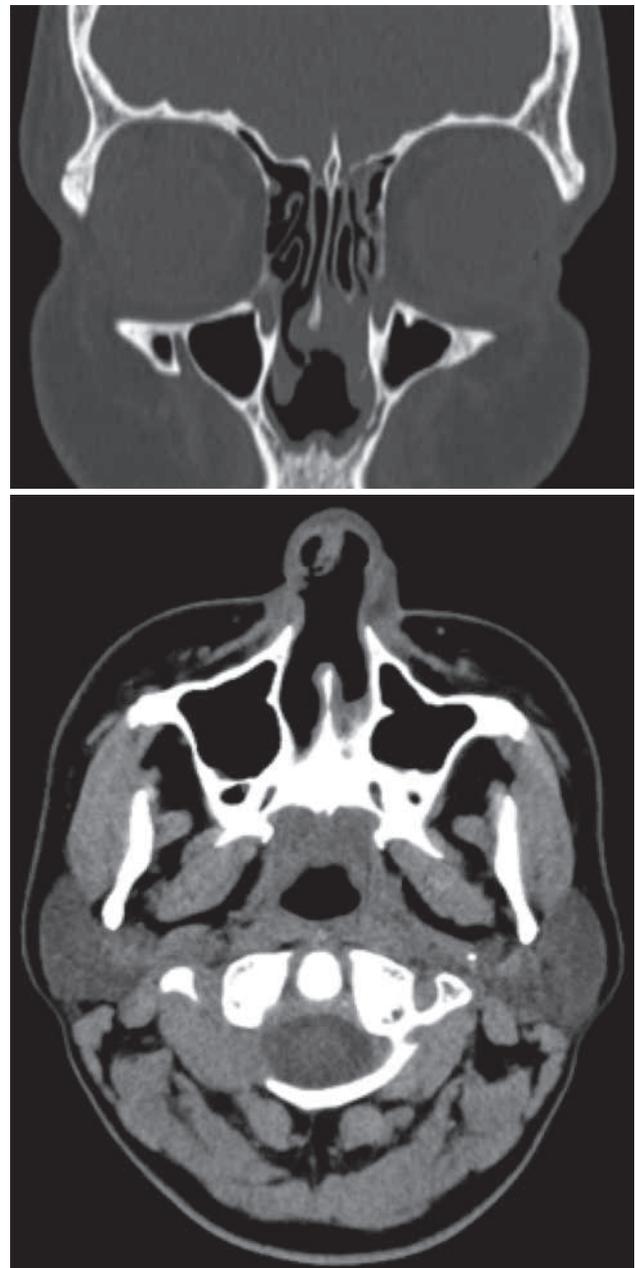


Figura 1: TC facial y senos paranasales. Se observa una perforación del tabique nasal y edematización de la mucosa nasal

anatomopatológico de las lesiones, que evidenció tejido necrótico y se realizó una tomografía computarizada (TC) facial que identificó perforación del tabique nasal, sinequias en ambas fosas nasales, erosión de la columela y formación de un orificio nasal único.

La paciente, durante su evolución, ha presentado varias infecciones que han requerido ingreso hospitalario para tratamiento. Actualmente ha abandonado el consumo de cocaína, continuando con seguimiento periódico en consultas para control evolutivo y valoración de alternativas terapéuticas a largo plazo.

Caso Clínico 2

Un hombre de 41 años con consumo habitual de cocaína acude a urgencias con fiebre, hinchazón y edema facial, además de una rinorrea crónica de más de tres años de evolución. En la exploración física, presenta edema bilateral en los párpados inferiores, aunque conserva la agudeza visual y la movilidad ocular. En la rinoscopia anterior, se observa una lesión en el vestíbulo nasal izquierdo; la nasofibroscopia revela una rinorrea purulenta junto con tejido granuloso que ocupa toda la fosa nasal izquierda, además de una perforación septal extensa e inflamación generalizada de la mucosa, con pérdida de la morfología de los cornetes.

El paciente requiere ingreso hospitalario para tratar la infección. Durante su estancia, las pruebas de laboratorio muestran una leve elevación de los ANCA (18UI/ml), ligeramente por encima del límite normal. Tras la resolución de la infección, se le da el alta con seguimiento ambulatorio.

En una de las consultas de seguimiento, se realiza una biopsia de una lesión en el área del cornete medio. El análisis anatomopatológico muestra tejido fibrinoleucocitario correspondiente a una úlcera con un foco de tejido de granulación. Se solicitan nuevas pruebas analíticas para controlar la elevación de los ANCA persistiendo positivos con niveles ligeramente más elevados que en la analítica previa (23,2 UI/ml) y requiriendo, por tanto, la solicitud de nuevas analíticas de control para vigilar los niveles.

Conclusiones

La cocaína causa un daño grave en la mucosa nasal debido a la vasoconstricción y necrosis que genera, lo que favorece la aparición de infecciones frecuentes, las cuales a menudo requieren tratamiento intensivo e incluso hospitalización. Con el tiempo, este daño puede progresar hasta provocar perforación del tabique nasal y desestructuración de la cavidad nasal, afectando significativamente la calidad de vida.

La presencia de ciertos marcadores, como los ANCA positivos, que se encuentran en un alto porcentaje de pacientes consumidores de cocaína, complica el diagnóstico, ya que los síntomas nasosinusales pueden confundirse con enfermedades autoinmunes, especialmente con la granulomatosis con poliangetis (GPA). Por esta razón, es crucial realizar un análisis minucioso que permita establecer una relación clara con el consumo de cocaína. Aunque la positividad de estos marcadores no parece útil para evaluar

la gravedad de la enfermedad.

Para que el tratamiento sea efectivo, es imprescindible la abstinencia total de cocaína, especialmente en los casos que requieran intervenciones quirúrgicas reconstructivas.

Bibliografía

1. Contreras Molina P, Flores Carmona E, Muñoz Palza CA, Tenor Serrano RL. Complicaciones nasales y orbitarias secundarias al abuso de cocaína inhalada. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2012;63(3):233-6. DOI: 10.1016/j.otorri.2010.12.004.
2. Flores Calle A, Martínez Álvarez R, Sánchez Cevallos RJ, Morales Castro C. Manifestaciones de cabeza y cuello secundarias al uso de cocaína. Revisión bibliográfica. *Rev Hispanoam Ci Quir.* 2022;12(1):45-58.
3. Suárez C, Rodrigo JP, Llorente JL, Ferlito A, Rinaldo A, Shaha AR, et al. Cocaine-induced midline destructive lesions: a clinical and pathologic spectrum. *Laryngoscope.* 2006;116(3):435-40. DOI: 10.1097/01.mlg.0000201423.10985.2b.
4. Mikkelsen P, Karlsberg A, Daugaard-Jensen O. Daños en la nariz y la región mediofacial por el abuso de cocaína. *Ugeskr Laeger.* 2022;184(16)
5. Nitro L, Pipolo C, Fadda GL, Allevi F, Borgione M, Cavallo G, et al. Distribution of cocaine-induced midline destructive lesions: systematic review and classification. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2022;279(7):3257-3267. doi: 10.1007/s00405-022-07290-1.
6. Iorio L, Davanzo F, Cazzador D, Codireni M, Fiorin E, Zanatta E, et al. Cocaine- and Levamisole-Induced Vasculitis: Defining the Spectrum of Autoimmune Manifestations. *J Clin Med.* 2024;13(17):5116. doi: 10.3390/jcm13175116.
7. Rampi A, Vinciguerra A, Bondi S, Policaro NS, Gastaldi G. Cocaine-induced midline destructive lesions: A real challenge in oral rehabilitation. *Int J Environ Res Public Health.* 2021;18(6):3219. doi: 10.3390/ijerph18063219.
8. Pendolino AL, Benshetrit G, Navaratnam AV, To C, Bandino F, Scarpa B, Kwame I, Ludwig DR, McAdoo S, Kuchai R, Gane S, Saleh H, Pusey CD, Randhawa PS, Andrews PJ. The role of ANCA in the management of cocaine-induced midline destructive lesions or ENT pseudo-granulomatosis with polyangiitis: a London multicentre case series. *Laryngoscope.* 2024 Jun;134(6):2609-2616. doi: 10.1002/lary.31219. Epub 2023 Dec 12.

Correspondencia

Dra. Laura Gil Lerín

Secretaría del Servicio de Otorrinolaringología
Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa
Av. San Juan Bosco, 15. Zaragoza, España.
Email: laurigille@gmail.com

Rinitis atrófica primaria. A propósito de un caso

Primary atrophic rhinitis. About a case

AUTORES

Fernández-Cotero S · Juárez M · García Fernández R · Romo Urgiles JD · Gil Lerin L · Fumanal Senz L · Munuera Jurado MM

Servicio de Otorrinolaringología de Hospital Clínico Lozano Blesa. Zaragoza, España.

RESUMEN

La ocena, término que describe condición médica consistente en una rinitis atrófica primaria cuya etiopatogenia aún se desconoce, aunque está fuertemente relacionado el bacilo gramnegativo *Klebsiella ozaenae*. Es una entidad crónica, progresiva muy sintomática de predominio en mujeres en edad media, que cursa con alteración geométrica de la fosa nasal, con la aparición de costras secas malolientes secundarias a un flujo de aire no fisiológico a nivel anterosuperior de las cavidades y región proximal de cornetes. Ante la ausencia de tratamiento curativo, el manejo suele ser conservador, buscando mejorar la calidad de vida de los pacientes, reservando el tratamiento quirúrgico en los casos refractarios e invalidantes.

PALABRAS CLAVE:

AA

SUMMARY

The ocena, a term that describes a medical condition consisting of a primary atrophic rhinitis whose etiopathogenesis is still unknown, although it is strongly related to the gram-negative bacillus *Klebsiella ozaenae*.

It is a chronic, progressive, highly symptomatic entity predominantly in middle-aged women, which presents with geometric alterations of the nasal fossa, with the appearance of dry, smelly crusts secondary to a non-physiological air flow at the anterosuperior level of the cavities and proximal region of bugles. In the absence of curative treatment, management is usually conservative, seeking to improve the quality of life of patients, reserving surgical treatment in refractory and disabling cases.

KEY WORDS:

Atrophic rhinitis, ocena, crusts.

Introducción

La ocena es una rinitis atrófica primaria cuya etiopatogenia aún se desconoce. Frecuentemente está relacionado el bacilo gramnegativo *Klebsiella ozaenae* (una subespecie de *Klebsiella pneumoniae* por su homología de ADN), aunque con esta entidad es difícil determinar en numerosas ocasiones si es el causante del cuadro o un gen oportunista responsable de la sobreinfección sobre la mucosa previamente dañada.^{1,2} No obstante, también se asocia con otros microorganismos como *Staphylococcus aureus*, *Proteus mirabilis*, *Escherichia coli*, entre otras.^{2,3}

Se presenta con más frecuentación en adultos. Se ha descrito mayor prevalencia en mujeres que en hombres con una relación 5,6:1.² Se ha planteado la asociación de esta patología con alteraciones hormonales (inicio tras pubertad, empeoramiento de los síntomas durante la menstruación y el embarazo). La presencia de pólipos nasales también se asocia como predisponente de esta entidad.

Su incidencia se ha visto actualmente disminuida debido al uso de antibióticos de amplio espectro para el manejo de infecciones crónicas nasales, pero en países como India, China, Egipto, su incidencia sigue siendo relativamente alta, de 0,3%-7,8%.³

Aunque desconocemos su patogenia, se ha demostrado la pérdida de epitelio ciliado columnar a nivel de la mucosa nasal, con presencia de metaplasia escamosa, inflamación crónica y fibrosis.^{1,2,3} Consecuentemente, se produce una erosión de las estructuras nasales tales como mucosa y cornetes nasales y una ampliación de la fosa. Se genera un flujo de aire no fisiológico secundario a la pérdida anormal de agua en la mucosa. Otras características son la atrofia de la mucosa nasal y del hueso subyacente de los cornetes, congestión nasal paradójica, epistaxis recidivante y, esporádicamente perforaciones septales secundarias a una vasoconstricción crónica.^{1,4} La rinorrea maloliente que caracteriza esta entidad es secundaria al acúmulo de secreciones viscosas y costras secas que se forman en la porción superoanterior de la fosa nasal y en región proximal del cornete medio, ya que son las zonas que sufren más cambios estructurales.

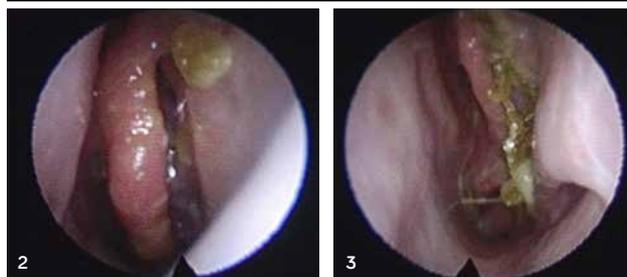
No hay tratamiento curativo de esta entidad, por lo que el principal objetivo es conseguir el control sintomático, eliminando las costras y restaurando la hidratación nasal. Sus pilares son una correcta higiene nasal con lavados nasales combinado emolientes nasales y el uso de antibióticos orales como ciprofloxacino, rifampicina o trimetropin-sulfametronidazol durante 2-3 meses.⁴ Los vasoconstrictores y esteroides tópicos están contraindicados. Las inyecciones submucosas de grasa autóloga y plasma rico en plaquetas a nivel

turbinal y septal presenta buenos resultados, dejando la cirugía para los casos severos refractarios a tratamiento médico, con objetivo de restaurar el tamaño de la fosa nasal.^{4,5}

Caso Clínico

Se presenta el caso de un paciente de 48 años que acude por cefalea continua de características tensionales y rinorrea maloliente con mala evolución pese a tratamiento antibiótico oral. Refiere antecedentes familiares de sinusitis de repetición y anosmia.

A la exploración presentaba en ambas fosas costras verdosas y rinorrea posterior purulenta en meato medio. Se tomo frotis con resultado positivo para streptococo pneumoniae y Kkebsiella pneumoniae sensibles a levofloxacino.



Figuras 1, 2 y 3: Imagen 1: Exploración normal. Imágenes 2,3: Costras verdosas cubriendo cornete medio atrofado. Palidez mucosa nasal.

Se solicitó un TAC de senos paranasales donde se apreció alteración morfoestructural de cavidad nasal, fundamentalmente a nivel de cornetes nasales medios e inferiores, que se mostraban erosionados e hipoplásicos, acompañándose de engrosamiento mucoso en meatos.

Se pautó tandas de lavados nasales con suero fisiológico, pomadas nasales antibióticas y quinolona oral, presentando buena evolución clínica con mejoría progresiva de los síntomas, refiriendo una mejor calidad de vida.



Figura 3: Corte coronal de senos paranasales donde se aprecia cavidades nasales amplias, atrofia e hipoplasia de cornetes medios e inferiores bilaterales, de predominio en fosa nasal izquierda. Engrosamiento mucoso a nivel de meato inferior y pérdida de la definición del complejo osteomeatal.

Conclusiones

La rinitis atrófica es una enfermedad crónica y progresiva que, pese a que su incidencia ha disminuido en la actualidad, persiste, teniendo repercusiones significativas de la calidad de vida de los pacientes, con altas puntuaciones según el cuestionario ENS (ENS6Q). El malestar es principalmente secundario a la fetidez y la formación constante de costras de las cavidades nasales. Su tratamiento es principalmente sintomático, ante la ausencia de tratamiento curativo, enfocado a aliviar síntomas y prevenir complicaciones.

Bibliografía

1. An Updated Review on Atrophic Rhinitis and Empty Nose Syndrome Sumaily IA, Hakami NA, Almutairi AD, et al. *Ear, Nose & Throat Journal*. 2023
2. Altered Nasal Microbiome in Atrophic Rhinitis: A Novel Theory of Etiopathogenesis and Therapy. Sarkar S, Magne F, Venugopal G, Purkait S, Mutha NVR, Maiti R, Sharma P, Ramadass B. *Microorganisms*. 2022 Oct 22;10(11):2092.
3. Historia del manejo de rinitis atrófica / The history of the treatment of atrophic rhinitis Burgos C, Ariel; Carrasco C, Rocío; Rodríguez H, Leandro; Silva C, Mauricio. *Rev. otorrinolaringol. cir. cabeza cuello*; 80(2): 226-236, jun. 2020. Graf
4. Therapeutic Management of Primary Atrophic Rhinitis (Ozene): About 4 Cases. Maalej F, Chaabouni MA, Ayadi S, Sellami M, Charfeddine I. *Ear, Nose & Throat Journal*. 2024
5. Influence of pallet rich plasma, quercetin and their combination on activity of nitric oxide cycle enzymes in nasal mucosa of patients with atrophic rhinitis. Bondarenko RV, Bezshapochnyy SB, Bezega MI, Loburets VV, Kostenko VO, Akimov OY, Bilous AM. *Pol Merkur Lekarski*. 2024;52(1):17-22.

Correspondencia

Dra. Marta Fernández Cotero Santiago Juárez
Secretaría del Servicio de Otorrinolaringología
Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa
Av. San Juan Bosco, 15. Zaragoza, España.
Email: mfernandezcotero@salud.aragon.es

Trauma laríngeo externo en edad pediátrica

External laryngeal trauma in pediatric age

AUTORES

García Fernández R · Romo Urgiles JD · Fernández-Cotero Santiago-Juárez M · Gil Lerín L · López Vázquez MA · Gasós Lafuente AM

Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa, Zaragoza (España).

RESUMEN

El trauma laríngeo es una lesión infrecuente que suele estar asociada a politraumatismos. Precisa de alta sospecha clínica, dado que los síntomas pueden no estar correlacionados con la gravedad de la lesión, cobrando especial importancia en estos casos la exploración y las pruebas de imagen. La clínica es muy variada (disfonía, dolor cervical, disnea...). El objetivo principal es valorar la vía aérea y asegurar la estabilidad del paciente. El tratamiento es individualizado y varía desde la observación y manejo sintomático hasta la reconstrucción laríngea completa.

PALABRAS CLAVE:

Traumatismo laríngeo, traumatismo cervical, fractura laríngea, disnea.

SUMMARY

Laryngeal trauma is an infrequent injury that is usually associated with polytrauma. It requires high clinical suspicion, since the symptoms may not be correlated with the severity of the injury, being especially important in these cases the exploration and imaging tests. The clinical manifestations are very varied (dysphonia, neck pain, dyspnea...). The main objective is to assess the airway and ensure the patient's stability. Treatment is individualized and varies from symptomatic observation and management to complete laryngeal reconstruction.

KEY WORDS:

Laryngeal trauma, cervical trauma, laryngeal fracture, dyspnea.

Introducción

El trauma laríngeo es una lesión infrecuente que suele estar asociada a politraumatismos. Puede comprometer la vía aérea, con un predominio en la edad adulta y en el sexo masculino^{1,2}. Dada la alta morbimortalidad que presenta, su sospecha clínica es esencial para la identificación de situaciones que pueden comprometer la vía aérea. Representa la segunda causa de muerte en los pacientes con traumatismo de cabeza y cuello, después de las lesiones intracraneales.^{2,3}

Estos traumatismos laríngeos se pueden clasificar en internos (o endolaríngeos) y externos. Los traumatismos laríngeos internos suelen ser de causa iatrogénica, bien por intubaciones endotraqueales o por manipulaciones quirúrgicas.²

Por su parte, el mecanismo de lesión más frecuente en los traumatismos laríngeos externos es el contusivo, ya sea por accidentes de tráfico, deportes, agresiones (estrangulamientos) o intentos de suicidio (ahorcamientos). El mecanismo de lesión penetrante es poco común y suele estar relacionado por heridas con arma blanca o de fuego.^{1,2}

Caso Clínico

Se presenta el caso de una niña de 12 años que acude al Servicio de Urgencias tras sufrir una caída accidental y

golpearse la región anterior del cuello. Refiere dolor cervical, odinofagia y disfonía. Sin otros antecedentes de interés.

En la palpación cervical presenta dolor y crepitación en la región anterior del cuello, y la exploración endolaríngea con fibrolaringoscopia pone en manifiesto una erosión sobre el repliegue aritenopiglótico izquierdo y una protrusión dependiente de pared faríngea lateral izquierda (Fig. 1), con las cuerdas vocales móviles y sin compromiso de la vía aérea.



Figura 1: Imagen de laringoscopia que muestra erosión en repliegue aritenopiglótico izquierdo y protrusión a nivel de pared faríngea lateral izquierda.

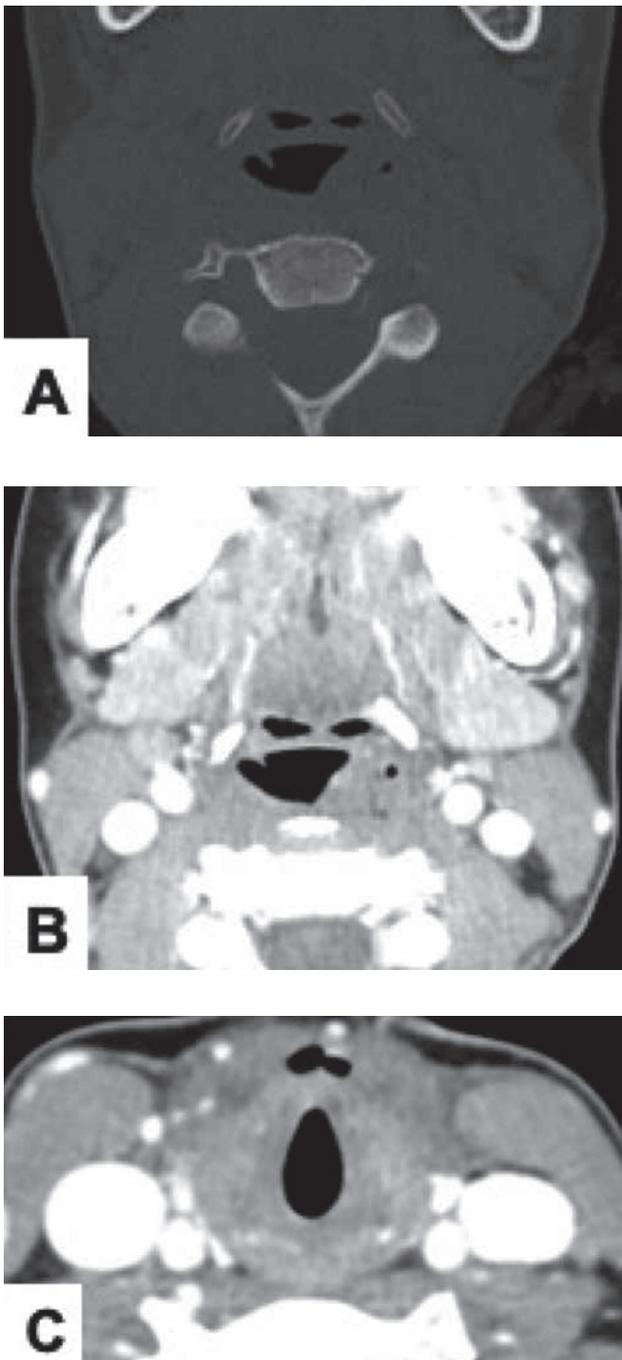


Figura 2: Tomografía computarizada corte axial (A ventana ósea, B y C ventana partes blandas). Se observa protrusión de partes blandas a nivel de asta mayor del hioides izquierdo (A,B), y enfisema a nivel anterior del cartilago tiroideos (C).

Se decide solicitar una tomografía computarizada (TC) que muestra enfisema subcutáneo a nivel de la incisura superior del cartilago tiroideo y una protrusión de densidad de partes blandas que hace impronta sobre la luz faringo-laríngea (Fig. 2).

Se trataría de una lesión de grupo 2 según la clasificación de Schaefer-Fuhrman y, dada la ausencia de clínica respiratoria y la estabilidad clínica y hemodinámica de la paciente, se decidió ingreso hospitalario y manejo conservador con fluidoterapia, corticoides y antibiótico intravenoso. Durante el ingreso se realizaron exploraciones con fibrolaringoscopia de control, estando la vía aérea estable en todo momento.

Discusión

Los traumatismos laríngeos externos cursan con una sintomatología variada que incluye disfonía, disfagia, dolor cervical, odinofagia, tos, hemoptisis o disnea. También puede haber pacientes asintomáticos en las primeras horas del traumatismo, por lo que se debe tener una alta sospecha clínica para la identificación temprana de lesiones, ya que es una entidad que puede ser potencialmente mortal.^{1,2,4}

El objetivo principal es comprobar el estado de la vía aérea y, en caso de estar comprometida, se debe asegurar la estabilidad del paciente mediante intubación orotraqueal o traqueotomía. A la palpación se puede detectar enfisema subcutáneo, fracturas o desviaciones laríngeas. La exploración mediante fibrolaringoscopia puede mostrar alteraciones de la motilidad de las cuerdas vocales, hematomas, laceraciones, edema, luxación aritenoidea o incluso una desestructuración endolaríngea.^{1,2}

En aquellos pacientes con vía aérea estable, la tomografía computarizada es la prueba de imagen que permite identificar y evaluar la extensión de las lesiones en el marco laríngeo. La ventana ósea es esencial para detectar líneas de fractura en cartilagos osificados, y la ventana de partes blandas evalúa mejor los cartilagos no osificados y los tejidos submucosos.^{5,6}

Tabla I: Sistema de clasificación Schaefer-Fuhrman para determinar la gravedad de las lesiones laríngeas.

Grupo	Gravedad de las lesiones
0	Laringe normal
1	Hematomas o laceraciones endolaríngeas menores sin fracturas detectables
2	Edema, hematoma, disrupción de la mucosa sin exposición de cartilago o fracturas no desplazadas
3	Edema masivo, extensas laceraciones de la mucosa, cartilago expuesto, fracturas desplazadas o inmovilidad de las cuerdas vocales
4	Igual que el grupo 3, pero con disrupción de la laringe anterior, fracturas inestables, dos o más líneas de fractura o lesiones mucosas graves
5	Disrupción laringotraqueal completa

La fibrolaringoscopia y la tomografía computarizada cervical permiten determinar la magnitud del cuadro, distinguiéndose 5 grupos según la gravedad de las lesiones: clasificación de Schaefer-Fuhrman⁷.

Respecto a la lesiones de partes blandas, las lesiones del ligamento vocal y del músculo tiroaritenoides se observan en las pruebas de imagen como engrosamientos a nivel de las cuerdas vocales. Cuando se objetiva aire en el interior del espacio paraglótico es indicativo de laceración mucosa, ya sea con o sin interrupción de la mucosa laríngea.^{5,6}

Por su parte, las lesiones cartilagosas se detectan por la falta de continuidad del cartílago en la tomografía computarizada^{5,6}. El cartílago tiroideo es la localización más habitualmente lesionada, seguida del cartílago cricoideos, el cartílago aritenoides y la epiglotis, pudiendo estar involucrados varios al mismo tiempo (hasta en el 37% de los casos).^{1,4}

En cuanto al manejo, lo primordial es la estabilización de la vía aérea. En caso de precisar asegurar vía aérea suele preferirse realizar cricotirotomía o traqueotomía, ya que la intubación endotraqueal puede alterar aún más la estructura laríngea.^{1,2}

Generalmente, se opta por un manejo conservador con observación estrecha, cobertura antibiótica, corticoterapia, oxigenoterapia humedecida, inhibidores de la bomba de protones y reposo vocal en las lesiones del grupo 1 y la mayoría de las lesiones del grupo 2. Por su parte, en el caso de lesiones de grupo 3 y 4 (y en algunos casos del grupo 2) suele ser necesaria la reducción abierta de la fractura mediante miniplacas, con o sin colocación de stents endolaríngeos. En estos casos la cirugía se realiza habitualmente en las primeras 24 horas, ya que disminuye la aparición de complicaciones posteriores. Las lesiones del grupo 5 precisan de una reconstrucción laringotraqueal compleja.^{1,2}

A largo plazo se pueden producir cambios en la estructura laríngea, como la remodelación ósea con formación de callos o pseudoartrosis en los cartílagos osificados; o la deformidad y menos frecuentemente la condrometaplasia nodular (proliferación de cartílago fibroelástico rodeado por un borde delgado de tejido fibroso) en los cartílagos no osificados. También se puede producir una pseudoartrosis, es decir, una cicatrización deficiente de una fractura (normalmente en las astas superiores del cartílago tiroideos), pudiendo ocasionar dolor a la deglución. Otras consecuencias que pueden ocurrir son la anquilosis cricoaritenoides, los granulomas postraumáticos y, en menor frecuencia, la estenosis subglótica.^{5,6}

En la población pediátrica la laringe está localizada más superiormente, protegida por la mandíbula, y el cartílago es más flexible, lo que explica una menor incidencia de fracturas. Sin embargo, hay mayor probabilidad de lesión de partes blandas con formación de edema o hematomas,

ya que los tejidos no están tan adheridos al pericondrio. En ocasiones, la tomografía computarizada no aporta gran información en estos pacientes dada la ausencia de osificación de los cartílagos, por lo que en estos casos puede ser de utilidad la resonancia magnética.^{8,9}

Conclusión

En los traumatismos laríngeos externos es esencial comprobar el estado de la vía aérea y, si está comprometida, realizar intubación orotraqueal o traqueotomía. La fibrolaringoscopia y la tomografía computarizada cervical permiten determinar la magnitud del cuadro, distinguiéndose 5 grupos según la gravedad de las lesiones (clasificación de Schaefer-Fuhrman).

Bibliografía

1. Moonsamy P, Sachdeva UM, Morse CR. Management of laryngotracheal trauma. *Ann Cardiothorac Surg.* 2018;7(2):210-216.
2. Ortiz A, Leonardo, Barahona A, Luis, Araya C, Patricio, & Zamorano S, Ricardo. (2019). Trauma laríngeo externo y fractura de cartílago tiroideos: Revisión de la literatura. *Revista de otorrinolaringología y cirugía de cabeza y cuello*, 79(4), 465-472.
3. Lee WT, Eliashar R, Eliachar I. Acute external laryngotracheal trauma: diagnosis and management. *Ear Nose Throat J* 2006; 85: 179-84
4. Kim JP, Cho SJ, Son HY, Park JJ, Woo SH. Analysis of clinical feature and management of laryngeal fracture: recent 22 case review. *Yonsei Med J* 2012; 53: 992-8.
5. Becker M, Leuchter I, Platon A, Becker CD, Dulguerov P, Varoquaux A. Imaging of laryngeal trauma. *Eur J Radiol.* 2014;83(1):142-154.
6. DiGrazia GN, Aktan SL, Sechrist EM, Rehn J, Joyce C, Siddiqui MH. CT Findings in Laryngeal Trauma and the Clinical Implications. *Clin Neuroradiol.* 2023;33(4):1123-1131.
7. Schaefer SD. The acute management of external laryngeal trauma. A 27-year experience. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1992;118(6):598-604.
8. Gold SM, Gerber ME, Shott SR, Myer CM 3rd. Blunt laryngotracheal trauma in children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1997;123(1):83-87.
9. Oosthuizen JC. Paediatric blunt laryngeal trauma: a review. *Int J Otolaryngol.* 2011;2011:183047.

Correspondencia

Dra. Rocío García Fernández

Secretaría del Servicio de Otorrinolaringología
Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa
Av. San Juan Bosco, 15. Zaragoza, España.
Email: rogarfer96@gmail.com

Tumor de células granulares: reporte de caso y revisión de literatura

Granular cell tumor: a case report and review of the literature

AUTORES

Sánchez Rodríguez S* · Leon L* · Ninfa Álvarez Morales A* · Rodríguez Rodríguez FA* · García Morales B*
Acuña Macchi JM* · Pérez Delgado L**

*Médico Interno Residente. **Médico adjunto. Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España

RESUMEN

El tumor de células granulares es un tumor frecuentemente benigno, cuya localización más habitual es en cabeza y cuello, ocupando la laringe en hasta el 10% de los casos, sobre todo el tercio posterior de las cuerdas vocales. Suele ser un diagnóstico histopatológico fortuito tras una microcirugía laríngea, expresando marcadores inmunohistoquímicos característicos. El tratamiento es la resección completa con márgenes amplios, y no se recomienda la radioterapia ni la quimioterapia. El diagnóstico diferencial histopatológico es importante, ya que puede confundirse con neoplasias malignas como el carcinoma escamoso bien diferenciado.

PALABRAS CLAVE:

Tumor de células granulares, laringe, glotis.

SUMMARY

Granular cell tumor is a frequently benign tumor, most commonly located in the head and neck, with the larynx affected in up to 10% of cases, particularly in the posterior third of the vocal cords. It is often an incidental histopathological diagnosis following laryngeal microsurgery, exhibiting characteristic immunohistochemical markers. The treatment involves complete resection with wide margins, and neither radiotherapy nor chemotherapy is recommended. The histopathological differential diagnosis is important, as it can be confused with malignant neoplasms such as well-differentiated squamous carcinoma.

KEY WORDS:

Granular cell tumor, larynx, glottis.

Introducción

El tumor de células granulares (TCG) es una neoforación rara, en su mayoría benigna, y puede presentarse en cualquier localización corporal¹. En la laringe, es más frecuente en mujeres y en pacientes afro-americanos; y suele tener mayor incidencia entre los 30 y los 60 años¹⁻³. Presentamos un caso clínico de TCG de cuerda vocal diagnosticado y tratado en nuestro Servicio y una revisión de la literatura.

Caso Clínico

Paciente profesional de la voz de 37 años, remitida a nuestro Servicio por disfonía de 2 años de evolución con imagen en rinofibrolaringoscopia de quiste intracordal en cuerda vocal derecha (CVD). Fumadora de 10 cigarrillos al día sin otros antecedentes médicos.

En la evaluación perceptual de la voz, se obtienen los siguientes resultados: escala GRABS de G2-R2-A0-B1-S2; EVA de 10 puntos; VHI-10 de 35 puntos y un TMF /a/ de 14 segundos. En la exploración mediante laringoestroboscopia se observa una lesión de aspecto quístico intracordal en la cara inferior de CVD, ocupando los dos tercios anteriores, con disminución en la vibración de la onda mucosa. La movilidad de las cuerdas vocales y la amplitud de movimiento eran normales (Fig. 1.A).

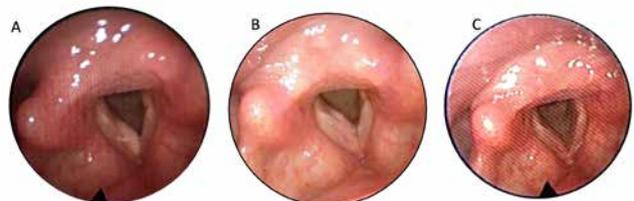


Figura 1A, 1B y 1C: (A) Imagen pre-quirúrgica de la lesión glótica. (B) Imagen postquirúrgica de la lesión glótica tras la primera intervención. (C) Imagen postquirúrgica 12 meses después de la segunda intervención.

Se realiza una fonocirugía: cordotomía con exéresis de la lesión intracordal sin observarse con claridad cápsula ni contenido quístico. El resultado anatómico-patológico es sugestivo de nódulo laríngeo fibroso, ligeramente mixoide con revestimiento de epitelio escamoso estratificado no queratinizante.

En la consulta de revisión 20 días tras la cirugía la paciente refiere la misma sensación de disfonía, con mayor esfuerzo vocal e incluso molestias cervicales. A la exploración se constató un GRABS de G2-R2-A0-B1-S2 (igual al pre-quirúrgico) y la estroboscopia mostró un abombamiento rígido en la cara inferior de CVD (Fig. 1.B).

Esta lesión persiste tras un mes, lo que lleva a solicitar una TC cervical (Fig. 2). Esta revela una lesión con realce en mitad anterior de CVD, sin existencia de infiltración hacia espacio paraglótico, sin adenopatías cervicales y sin otros hallazgos en resto de faringo-laringe.

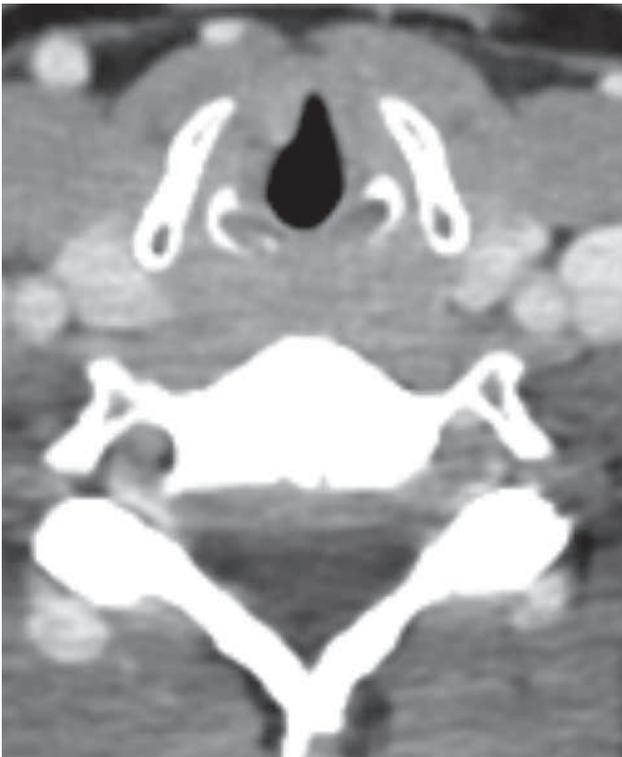


Figura 2: TC cervical. Lesión con realce en mitad anterior de CVD que abomba hacia línea media y subglotis, sospechosa de neoformación, sin alcanzar comisura anterior.

Se realiza de nuevo una microcirugía de laringe, llevando a cabo exéresis completa de la lesión con un resultado histológico de “mucosa laríngea con fibrosis y proliferación de células eosinófilas con citoplasma granular (Fig.3)”. El inmunofenotipado mostró expresión de S100 (Fig. 4A y 4B), Ki-67 negativo y ausencia de expresión de panqueratina AE1AE3 y de actina de músculo (Fig. 5A y 5B). Todo ello sugestivo morfológica e inmunofenotípicamente de tumor de células granulares.

En las revisiones tras la cirugía la paciente refiere buena calidad vocal, sin hallazgos representativos en la fibroscopia salvo una cuerda vocal derecha ligeramente más voluminosa, con vascularización longitudinal en su superficie y con una buena vibración de onda mucosa (Fig. 1C).

La paciente permanece desde hace 14 meses en seguimiento, con un GRABS de 0 puntos y sin signos de recidiva tumoral.

Discusión

El TCG es un tipo muy infrecuente de neoplasia. A pesar de que se puede originar en cualquier región del cuerpo, su localización más frecuente es en cabeza y cuello. Dentro de esta ubicación, el hallazgo de un TCG en laringe ocurre entre el 3-10% de los casos.¹⁻⁵

Su histogénesis ha suscitado mucha controversia desde su descubrimiento por Abrikossoff en 1926 hasta el momento actual. Hoy en día, la hipótesis más extendida en la literatura, gracias a las técnicas de tinción immuno-

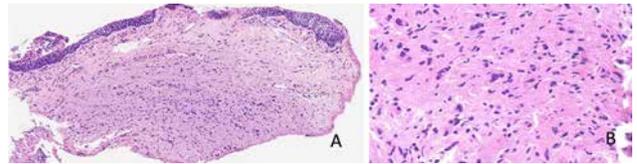


Figura 3A y 3B: Hematoxilina-Eosina (H&E) - (A) Visión panorámica: Lesión submucosa, mal delimitada, no encapsulada, con bordes mal definidos. - (B) 40X: La lesión está formada por células grandes, redondeadas, poligonales o alargadas con bordes mal definidos. El sincitio es común. Los núcleos son pequeños, hiper cromáticos a vesiculares, ubicados centralmente y los citoplasmas abundantes, eosinófilos y groseramente granular (lleno de lisosomas).

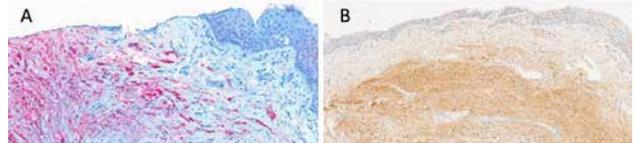


Figura 4A y 4B: S100 rojo 10X (A) y S100 “normal” 5X (B) Típicamente las células granulares son positivas para S100.

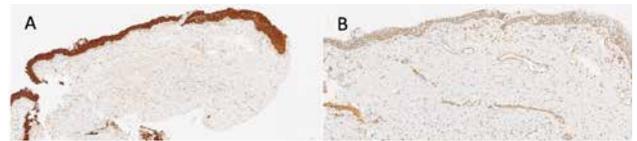


Figura 5A y 5B: Panqueratina (CKAE1-AE3) panorámica (A) y actina de músculo liso 5X. (B) Típicamente negativos en el tumor de células granulares, nos permiten descartar otras lesiones como un carcinoma, un rabdomioma o un leiomioma.

histoquímicas, es que el TCG tiene origen en las células de Schwann.^{1,3,5,6}

Histológicamente, son tumores submucosos, no encapsulados y de bordes mal definidos. Se componen de células grandes, redondeadas, poligonales o alargadas, con un sincitio común. Presentan núcleos pequeños, desde hiper cromáticos a vesiculares, ubicados centralmente y abundante citoplasma lleno de gránulos eosinófilos por la presencia de lisosomas ^{1,6}.

En un 50-65% de los casos, los resultados de anatomía patológica demuestran una hiperplasia escamosa pseudoepiteliomatosa (HEP) en el tejido epitelial adyacente, que puede ser confundido con neoplasias malignas, sobre todo en biopsias superficiales ^{1,4,6,7}. Por ello el diagnóstico diferencial histopatológico con el carcinoma escamoso bien diferenciado puede llegar a ser difícil y cobra vital importancia dado que un diagnóstico erróneo conlleva planes terapéuticos radicales (Tabla I). En la literatura existen también casos reportados de coexistencia de carcinoma de células escamosas y TCG, descritos en su gran mayoría en el esófago, pero también en cabeza y cuello⁸.

Las técnicas inmunohistoquímicas permiten caracterizar el TCG, dado que presenta positividad para la proteína S-100, la enolasa neuronal y proteínas mielínicas ^{2,3,5,6,9}. También presenta positividad para CD68 (KP-1) y SOX-10 ^{2,3,5,7,9}, y es posible la expresión de inhibina- α y producto génico proteico 9.5 entre otros ^{3,5,9}. Además presentan negatividad para CK, HMB45, GLUT-1 y otros marcadores musculares ^{5,6}.

Tabla I: Tabla de diagnóstico diferencial histopatológico del tumor de células granulares

Diagnóstico diferencial	Características Histológicas	Características Distintivas
Carcinoma de células escamosas	La hiperplasia pseudoepiteliomatosa puede imitar carcinoma de células escamosas. Se trata de un carcinoma procedente de los queratinocitos, que infiltra la dermis. A menudo, se asocia con una lesión precursora, como la queratosis actínica.	El carcinoma escamoso procede de una displasia del epitelio de superficie. Además, cuenta con criterios de malignidad como el pleomorfismo, mitosis atípicas y la infiltración.
Rabdomioma en adultos	Células grandes, poligonales, vacuoladas, con estriaciones cruzadas.	Estriaciones, vacuolización, positivo para desmina y mioglobina.
Paraganglioma	Patrón organoide, células sustentaculares.	Positivo para marcadores neuroendocrinos.
Tumor de células granulares maligno	Similares al tumor de células granulares benigno (células redondeadas o poligonales con núcleos centrales desde hiperromático a vesiculares y citoplasma granular eosinófilo), pero cuenta con características que denotan malignidad.	Pleomorfismo, necrosis, aumento de mitosis.
Tumor de células epitelioides perivasculares	Células poligonales o epitelioides, citoplasma granular.	Nidos con estroma vascular, positivo para HMB-45, negativo para S100.
Sarcoma de partes blandas alveolar	Nódulos sólidos con septos delgados, células poligonales, citoplasma granular.	Positivo para TFE3, negativo para proteína S100 y desmina.
Schwannoma	Bordes bien definidos, cuerpos de Verocay, áreas de Antoni A y B.	Positivo para S100 y SOX10, raro en laringe.
Leiomioma	Fascículos de células alargadas, sin citoplasma granular.	Positivo para actinas y desmina, negativo para S100.

La clínica de los TCG laríngeos depende de la localización y del tamaño del tumor. Lo más común es que debuten con disfonía -presente en hasta un 90% de los casos- ya que lo más frecuente es que se asienten en el tercio posterior de las cuerdas vocales. No obstante, es posible hallar síntomas como disnea, estridor, disfagia e incluso hemoptisis y otalgia^{1-3,6,7}. Generalmente su diagnóstico es histológico e inesperado para el cirujano, rara vez pre-quirúrgico, a menos que haya antecedentes personales de TCG en otras localizaciones^{1,2}.

A pesar de que la mayoría de los TCG son benignos, se han reportado casos de malignidad, representando solamente del 1-2% de los casos. Debe sospecharse en caso de características histopatológicas sugestivas de malignidad, empleando los criterios Fanburg-Smith y Nasser; o en caso de signos clínicos de agresividad como un tamaño tumoral ≥ 4 cm con rápido crecimiento, recurrencias o infiltración.^{2,4,7,9}

El tratamiento de elección es la resección completa con márgenes libres amplios, ya que sino ocurren recurrencias locales en hasta el 21% de los casos^{2,4,6,7,10}. La técnica quirúrgica de elección es el abordaje endoscópico, y en caso de no ser posible se podría plantear una técnica abierta -como una laringofisura o una laringectomía parcial-^{2,3,6}. No se recomienda el tratamiento con quimioterapia o radioterapia en el manejo terapéutico de TCG²⁻⁴.

Bibliografía

- Sataloff RT, Ressue JC, Portell M, Harris RM, Ossoff R, Merati AL, et al. Granular cell tumors of the larynx. *J Voice*. 2000 Mar;14(1):119-34.
- White JB, Glade R, Rossi CT, Bielamowicz S. Granular Cell Tumors of the Larynx: Diagnosis and Management. *J Voice*. 2009 Jul;23(4):516-7.
- Arevalo C, Maly B, Eliashar R, Gross M. Laryngeal Granular Cell Tumor. *J Voice*. 2008 May;22(3):339-42.
- Park JH, Do NY, Cho SI, Choi JY. Granular Cell Tumor on Larynx. *Clin Exp Otorhinolaryngol*. 2010;3(1):52.
- Mobarki M, Dumollard JM, Dal Col P, Camy F, Peoc'h M, Karpathiou G. Granular cell tumor a study of 42 cases and systemic review of the literature. *Pathol - Res Pract*. 2020 Apr;216(4):152865.
- Cuestas, G; Rodríguez, V; Doormann, F; Munzón, PB; Munzón G. Tumor de células granulares de laringe en el niño. Caso clínico. *Arch Argent Pediatr*. 2018 Feb 1;116(1).
- Luke AS, Mairson TM, Husain IA, Kaplan SE. Granular Cell Tumors of the Larynx: A Systematic Review. *Laryngoscope*. 2024 Apr 2;134(4):1523-30.
- Caroppo D, Salerno G, Merolla F, Mesoella M, Ilardi G, Pagliuca F, et al. Coexistent Squamous Cell Carcinoma and Granular Cell Tumor of Head and Neck Region: Report of Two Very Rare Cases and Review of the Literature. *Int J Surg Pathol*. 2018 Feb 7;26(1):47-51.
- Le BH, Boyer PJ, Lewis JE, Kapadia SB. Granular Cell Tumor: Immunohistochemical Assessment of Inhibin- α , Protein Gene Product 9.5, S100 Protein, CD68, and Ki-67 Proliferative Index With Clinical Correlation. *Arch Pathol Lab Med*. 2004 Jul 1;128(7):771-5.
- Yilmaz AD, Unlu RE, Orbay H, Sensoz O. Recurrent Granular Cell Tumor. *J Craniofac Surg*. 2007 Sep;18(5):1187-9.