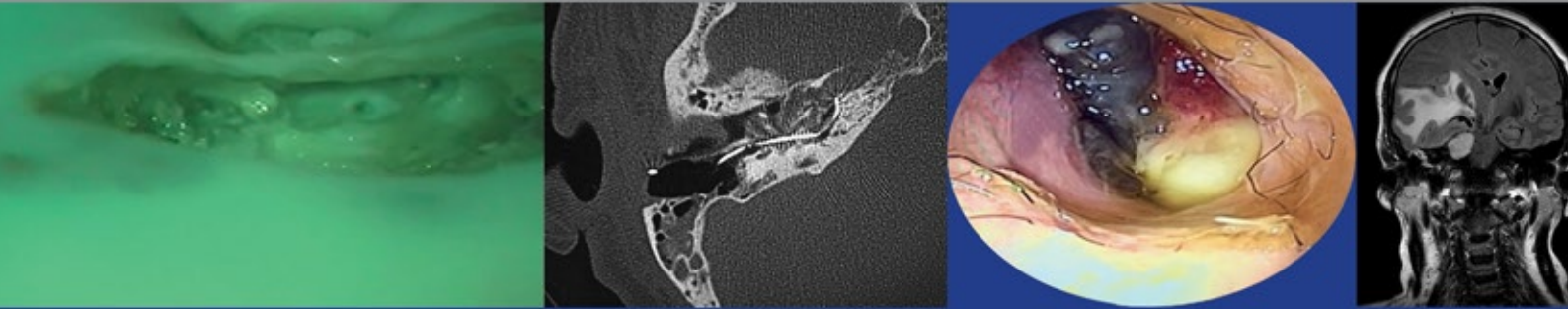


Anales de Otorrinolaringología Mexicana



Comportamiento clínico, diagnóstico y tratamiento de la rinosinusitis crónica polipoidea

Utilización de diversos métodos de conservación de cartílago septal. Comparación de cuatro sistemas

Bocio intratorácico compresivo: una manifestación atípica

Colesteatoma con autocavidad de mastoidectomía en una paciente con síndrome progeroide

Hemangioma orofaríngeo recidivante en un paciente adulto

Melanoma de la mucosa nasal

Meningioma de hueso temporal como causa de otitis media serosa crónica unilateral

La importancia de la creación de un modelo de hueso temporal en impresora 3D para el laboratorio de fresado. Revisión de casos recreados

Otoesclerosis severa avanzada, osificada y cavitaria e implante coclear

Manejo integral del síndrome de Meige

Sociedad Mexicana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, AC.



Volumen 65, Núm. 4, 2020

Revista Anales de Otorrinolaringología Mexicana

Órgano de difusión de:

Sociedad Mexicana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello
Asociación Mexicana de Comunicación, Audiología, Otoneurología y Foniatría
Asociación Panamericana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello

Director-Editor

Luz Arcelia Campos Navarro
lucycampos@prodigy.net.mx

Editores en Jefe

Edgard Novelo Guerra
Mauricio Morales Cadena

Editores asociados

Otorrinolaringología general: Dr. Alejandro Vargas Aguayo
Cirugía plástica facial: Dr. Jaime Fandiño Izundegui
Cirugía de cabeza y cuello: Dr. Héctor Prado Calleros
Base de cráneo: Dr. Guillermo Hernández Valencia
Trauma facial: Dr. Marcos Antonio Rodríguez Perales
Laringología: Dr. Mario Antonio Barrón Soto
Otología: Dr. Gonzalo Corvera Behar
Neurotología: Dr. Carlo Pane Pianese
ORL pediátrica: Dr. Enrique Azuara Pliego
Nariz y senos paranasales: Dr. José R Arrieta Gómez
Imagenología: Dr. Fernando Martín Biasotti
Especialidades afines: Dr. Miguel Ángel Collado Corona
Casos clínicos: Dr. Germán Fajardo Dolci

Consejo Editorial

Arrieta Gómez José R, Ciudad de México
Astorga del Toro Rigoberto, Guad., Jal.
Azuara Pliego Enrique, Ciudad de México
Barrón Soto Mario Antonio, Ciudad de México
Chavolla Magaña Rogelio, Ciudad de México
Collado Corona Miguel Ángel, Ciudad de México
Corvera Behar Gonzalo, Ciudad de México
De la Garza Hesles Héctor, Ciudad de México
Fajardo Dolci Germán, Ciudad de México
Fandiño Izundegui Jaime, Ciudad de México
Fernández Espinosa Jaime, Ciudad de México
García Lara León Felipe, Ciudad de México

García Palmer Rafael, Ciudad de México
Gerson Cwilich Raquel, Ciudad de México
González Romero Armando, Guad., Jal.
Guinto Balanzar Martha Patricia, Ciudad de México
Gutiérrez Marcos José Ángel, Ciudad de México
Hernández Palestina Mario, Ciudad de México
Hernández Valencia Guillermo, Ciudad de México
Labra Herrera Alberto, Ciudad de México
Lugo Saldaña Rodolfo, Mty., NL
Martín Biasotti Fernando, Ciudad de México
Montes de Oca Rosas David, Ciudad de México

Morales Cadena Mauricio, Ciudad de México
Pane Pianese Carlo, Ciudad de México
Prado Calleros Héctor, Ciudad de México
Ramírez Oropeza Fernando, Puebla, Pue.
Rivera Pesquera Francisco, Querétaro, Qro.
Rodríguez Perales Marcos Antonio, Ciudad de México
Schimelmitz Idi José, Ciudad de México
Soda Merhy Antonio, Ciudad de México
Toledo de Coutinho Heloisa, Ciudad de México
Vargas Aguayo Alejandro, Ciudad de México
Vargas Jiménez José Luis, Ciudad de México
Zubiaur Gomar Fermín M, Ciudad de México

Consejo Editorial Extranjero

Angeli Simon I, Miami, FL.
Bhatt Nikhil J, Chicago, Illinois
Casiano Roy R, Miami, FL.
Cobo Sefair Roxana, Bogotá, Colombia
Draf Wolfgang Fulda, Alemania

Gullane Patrick J, Toronto, Canadá
Koltai Meter J, Stanford, CA.
Lee KJ, Boston, MA.
Lusk Rodney P, Omaha, Nebraska
Myers Eugene, Pittsburgh, MA.
Paparella Michael, Minneapolis, MN.

Papel Ira, Washington, DC.
Rosenfeld Richard M, Nueva York, NY.
Ruíz Héctor E, Rosario, Argentina
Villagra Siles Erick, Bolivia
Wei William I, Hong Kong

Consejeros al Comité Editorial

Dr. Rafael García Palmer
Dr. Daniel Bross Soriano

Dr. Marcos A Rodríguez Perales
Dr. Pelayo Vilar Puig

Publicada por la Sociedad Mexicana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello

Presidente: Dr. Martín Ramiro Castañeda de León
Secretario: Dr. Fermín Marcel Zubiaur Gomar

Vicepresidente: Puesto vacante
Tesorero: Dr. Rafael Muñoz Garrido

Dirección comercial y oficina de redacción: Sociedad Mexicana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Montecito 38, W.T.C. Piso 18 oficinas 24-26, colonia Nápoles, CP 03810, México, DF. Tel.: 3095-4640 al 43, fax 3095-4639. Correo electrónico: aom@smorlccc.org.mx, www.smorlccc.org.mx Registro de la Dirección General de Derecho de Autor No. 743-92. Certificado de licitud de contenido No. 4877 Certificado de licitud de título No. 6442 Registro I.S.S.N. No. 1665-5672. Publicación periódica, permiso Registro Postal CR-DF 090-96 Autorizados por SEPOMEX. Esta revista se encuentra indizada a: LILACSY ARTEMISA, MEDIC LATINA. Publicación realizada, comercializada y distribuida por **Edición y Farmacia SA de CV**. Cerrada de Antonio Maceo 68, colonia Escandón, CP 11800 Ciudad de México. Teléfono: 5678-2811. La revista también se publica en: www.nietoeditores.com.mx y www.otorrino.org.mx

CONTENIDO

ARTÍCULOS ORIGINALES

- 161 **Comportamiento clínico, diagnóstico y tratamiento de la rinosinusitis crónica polipoidea**
Josué A García, Alejandro Carías, Vilma Díaz
- 168 **Utilización de diversos métodos de conservación de cartilago septal. Comparación de cuatro sistemas**
Juan Eugenio Salas-Galicia, Héctor Ramírez-Ojeda, Fausto López-Infante, Rodolfo Sánchez-Cisneros

CASOS CLÍNICOS

- 175 **Bocio intratorácico compresivo: una manifestación atípica**
Alan Barker-Antonio, Ediel Osvaldo Dávila-Ruiz, Roberto Armando García-Manzano, Sergio Vásquez-Ciriaco
- 181 **Colesteatoma con autocavidad de mastoidectomía en una paciente con síndrome progeroide**
Samantha Valdés-Pineda, Jaqueline Ramírez-Anguiano, Lorena Enríquez-Figueroa, Alexia Esquinca-González
- 186 **Hemangioma orofaríngeo recidivante en un paciente adulto**
Samantha Valdés-Pineda, Jaqueline Ramírez-Anguiano, Francisco Soroa-Ruiz, María Fernanda Ochoa-Chávez
- 191 **Melanoma de la mucosa nasal**
Jorge Alberto Romo-Magdaleno, José Pablo Busto-Ruano, Laura María Reyes-Ortega
- 199 **Meningioma de hueso temporal como causa de otitis media serosa crónica unilateral**
Eugenia López-Simón, Patricia Corriols-Noval, Nathalia Castillo-Ledesma; Minerva Rodríguez-Martín
- 205 **La importancia de la creación de un modelo de hueso temporal en impresora 3D para el laboratorio de fresado. Revisión de casos recreados**
Ramón Horcasitas-Pous, Andrea González
- 212 **Otosclerosis severa avanzada, osificada y cavitaria e implante coclear**
José Alberto López-Sisniega, Simón González-Domínguez, César Cardona-Martínez, Rosa Oliva Paquot-Chico, Luis M Valdés-Oberhauser
- 221 **Manejo integral del síndrome de Meige**
Víctor Manuel Valadez-Jiménez, Alejandro Francisco Rodríguez-Mauricio, Salvador José Santamaría-Molina, Alicia Valentina García-Arango

CONTENTS

ORIGINAL ARTICLES

- 161 **Clinical behavior, diagnosis and treatment of polypoid chronic rhinosinusitis**
Josué A García, Alejandro Carías, Vilma Díaz
- 168 **Use of different conservation methods of septal cartilage. A comparison of four systems**
Juan Eugenio Salas-Galicia, Héctor Ramírez-Ojeda, Fausto López-Infante, Rodolfo Sánchez-Cisneros

CLINICAL CASES

- 175 **Compressive intrathoracic goiter: an atypical presentation**
Alan Barker-Antonio, Ediel Osvaldo Dávila-Ruiz, Roberto Armando García-Manzano, Sergio Vásquez-Ciriaco
- 181 **Cholesteatoma with mastoidectomy autocavity in a progeroid syndrome patient**
Samantha Valdés-Pineda, Jaqueline Ramírez-Anguiano, Lorena Enríquez-Figueroa, Alexia Esquinca-González
- 186 **Recurrent oropharyngeal hemangioma in an adult patient**
Samantha Valdés-Pineda, Jaqueline Ramírez-Anguiano, Francisco Soroa-Ruiz, María Fernanda Ochoa-Chávez
- 191 **Melanoma of the nasal mucosa**
Jorge Alberto Romo-Magdaleno, José Pablo Busto-Ruano, Laura María Reyes-Ortega
- 199 **Temporal bone meningioma as a cause of unilateral chronic serous otitis media**
Eugenia López-Simón, Patricia Corriols-Noval, Nathalia Castillo-Ledesma; Minerva Rodríguez-Martín
- 205 **The importance of creating a temporal bone model in a 3D printer for the milling laboratory. Review of recreated cases**
Ramón Horcasitas-Pous, Andrea González
- 212 **Severe advanced, ossified and cavitary otosclerosis and cochlear implant**
José Alberto López-Sisniega, Simón González-Domínguez, César Cardona-Martínez, Rosa Oliva Paquot-Chico, Luis M Valdés-Oberhauser
- 221 **Integral management of Meige's syndrome**
Víctor Manuel Valadez-Jiménez, Alejandro Francisco Rodríguez-Mauricio, Salvador José Santamaría-Molina, Alicia Valentina García-Arango

Las instrucciones a los autores sobre la **FORMA DE PRESENTAR SUS MANUSCRITOS** la pueden consultar en el sitio WEB de la Sociedad Mexicana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, A.C.
<http://www.smorlccc.org.mx/adentro.asp?pagina=/interes/revista/instrucciones.asp>



Comportamiento clínico, diagnóstico y tratamiento de la rinosinusitis crónica polipoidea

Clinical behavior, diagnosis and treatment of polypoid chronic rhinosinusitis.

Josué A García,¹ Alejandro Carías,² Vilma Díaz³

Resumen

ANTECEDENTES: La rinosinusitis crónica polipoidea se distingue por dos o más síntomas que persisten por un periodo mayor a doce semanas, estos síntomas pueden ser obstrucción nasal, rinorrea, dolor u opresión facial y alteración en la olfacción.

OBJETIVO: Analizar el comportamiento clínico, diagnóstico y de tratamiento de los pacientes con rinosinusitis crónica con pólipos en el Hospital Escuela Universitario.

MATERIAL Y MÉTODO: Estudio descriptivo, transversal, observacional, sometido y aprobado por el Comité de Ética en Investigaciones Biomédicas de la Facultad de Ciencias Médicas de la Universidad Nacional Autónoma de Honduras (UNAH), efectuado de enero de 2018 a marzo de 2019.

RESULTADOS: Se incluyeron 36 pacientes hospitalizados en sala de otorrinolaringología del Hospital Escuela Universitario; la edad promedio fue de 40.5 ± 13.4 años, 61.1% de los casos fue del sexo femenino, las manifestaciones clínicas más comunes fueron obstrucción nasal y rinorrea con 97.2 y 86.1%, respectivamente. El diagnóstico de estos pacientes se complementó con endoscopia nasal y tomografía computada, el tratamiento farmacológico se basó en esteroides nasales tópicos y antihistamínicos. A los 36 pacientes se les realizó cirugía endoscópica nasal; se encontró un papiloma nasal invertido en estudio histopatológico.

CONCLUSIONES: La rinosinusitis crónica polipoidea fue más frecuente en el sexo femenino; los pacientes recibieron tratamiento con esteroides nasales tópicos y cirugía endoscópica nasal; como hallazgo histopatológico se reportó un papiloma nasal invertido en un paciente, lo que determina la importancia de este estudio.

PALABRAS CLAVE: Rinosinusitis; rinosinusitis crónica; pólipos nasales.

Abstract

BACKGROUND: Chronic polypoid rhinosinusitis is characterized by the presence of two or more symptoms that persist for a period greater than twelve weeks, these symptoms can be nasal obstruction, rhinorrhea, facial pain or tightness and alteration in olfaction.

OBJECTIVE: To analyze the clinical behavior, diagnosis and treatment of patients with chronic rhinosinusitis with polyps, at the Hospital Escuela Universitario.

MATERIAL AND METHOD: A descriptive, cross-sectional, observational study, submitted and approved by the ethics, research and bioethics committee of the National Autonomous University of Honduras, Faculty of Medical Sciences, from January 2018 to March 2019.

RESULTS: It included 36 patients hospitalized in the otolaryngology ward of the University Hospital. The average age was 40.5 ± 13.4 years, 61.1% of the cases were female, the most common clinical manifestations were nasal obstruction and rhinorrhea with 97.2% and 86.1%, respectively, complementing the diagnosis of these patients with nasal endoscopy and computed tomography, the pharmacological treatment was based on topical nasal steroids and antihistamines. The 36 patients underwent endoscopic nasal surgery, finding an inverted nasal papilloma on histopathological study.

¹ Posgrado de ORL.

² Unidad de Investigación Científica.

³ Departamento de Cirugía. Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional Autónoma de Honduras, Honduras.

Recibido: 30 de abril 2020

Aceptado: 13 de octubre 2020

Correspondencia

Alejandro Carías
jacarias@unah.edu.hn

Este artículo debe citarse como

García JA, Carías A, Díaz V. Comportamiento clínico, diagnóstico y tratamiento de la rinosinusitis crónica polipoidea. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 161-167.

CONCLUSIONS: Chronic polypoid rhinosinusitis was more frequent in females, managed with topical nasal steroids and nasal endoscopic surgery, reporting an inverted nasal papilloma as a histopathological finding in a patient, which determines the importance of this study.

KEYWORDS: Rhinosinusitis; Chronic rhinosinusitis; Nasal polyps.

ANTECEDENTES

La rinosinusitis crónica se distingue por cambios inflamatorios crónicos e hiperplasia de la mucosa nasal y senos paranasales, suele ser multifocal y bilateral, se divide en con o sin pólipos nasales. Se define por la existencia de dos o más síntomas que persisten por un periodo mayor a 12 semanas, estos síntomas pueden ser obstrucción nasal, rinorrea, dolor u opresión facial y alteración en la olfacción. Se confirma con la existencia de pólipos nasales en la endoscopia; además, alteraciones de las mucosas en el complejo osteomeatal en la tomografía computada.^{1,2}

La prevalencia de la rinosinusitis crónica polipoidea en la población adulta se ha estimado en 2 a 4%, se encuentra frecuentemente en la cuarta y quinta décadas de la vida, predomina en el sexo masculino con una proporción 2:1. Este padecimiento es poco frecuente en la infancia y se ha relacionado con fibrosis quística, además, se describe el síndrome de Woakes que se define como una etmoiditis deformante con ensanchamiento de la pirámide nasal debido a poliposis desde la infancia.³

Actualmente la poliposis nasal se incluye como parte del concepto de rinosinusitis crónica, de la que aún hoy se dispone de información limitada en cuanto a su causa y fisiopatología, los factores asociados con la poliposis nasal incluyen infecciones bacterianas, fúngicas, virales, alergias y predisposición genética. Se ha relacionado la po-

liposis nasal con otras afecciones, como el asma, rinitis alérgica, fibrosis quística y la intolerancia a los antiinflamatorios no esteroides (AINEs).^{3,4}

Según la European Position Paper On Rhinosinusitis And Nasal Polyps (EPOS),³ la rinosinusitis crónica es la que dura más de 12 semanas, sus síntomas cardinales son la obstrucción nasal, rinorrea, dolor facial y alteraciones olfativas, observándola en la endoscopia o tomografía computada. En esta serie se encontró la misma correlación clínica, también reportó otros síntomas menores, como existencia de masas, picor y estornudos, epistaxis y tos.

Los hallazgos clínicos orientan al diagnóstico, que se confirma con la existencia de pólipos nasales en la endoscopia nasal y la tomografía computada que aporta información adicional, como extensión de las lesiones y afección concomitante; en caso de poliposis unilateral, es importante descartar neoplasia mediante anatomía patológica. El tratamiento farmacológico se basa en terapia con corticosteroides tópicos intranasales que alivian los síntomas, ciclos cortos de esteroides por vía oral, además de otros tratamientos médicos en casos individualizados, el último escalón en el manejo de la poliposis nasosinusal es el tratamiento quirúrgico, la cirugía endoscópica nasosinusal es la más utilizada en la actualidad.^{5,6}

Con base en lo expuesto, en este estudio se pretendió analizar el comportamiento clínico,



diagnóstico y de tratamiento de los pacientes con rinosinusitis crónica con pólipos en el Hospital Escuela Universitario.

MATERIAL Y MÉTODO

Estudio con enfoque cuantitativo y diseño no experimental, descriptivo, transversal, realizado en el periodo de enero de 2018 a marzo de 2019 en pacientes mayores de 18 años con sospecha de rinosinusitis crónica polipoidea, ingresados en la sala de otorrinolaringología del Hospital Escuela en la ciudad de Tegucigalpa, Honduras.

Se obtuvo una muestra de 36 pacientes diagnosticados con rinosinusitis crónica polipoidea; se solicitó firma del consentimiento informado aprobado por el CEIB-FCM con número de registro IRB 00003070. Se les aplicó el instrumento que constaba de variables, como datos sociodemográficos, manifestaciones clínicas, métodos diagnósticos utilizados, tipo de tratamiento aplicado, así como realización de estudios histopatológicos. Se registró edad y sexo de todos los pacientes, así como las manifestaciones clínicas descritas por los pacientes según la *European Position Paper on Rhinosinusitis and Nasal Polyps* (EPOS) de 2012.

A todos los pacientes se les realizó historia clínica, exploración física otorrinolaringológica al momento del ingreso, rinoscopia anterior o nasofibrosocopia flexible para valorar fosas nasales, tomografía computada de nariz y senos paranasales para valorar la localización, extensión de la rinosinusitis crónica polipoidea, y la integridad de las estructuras óseas y partes blandas circundantes, la biopsia se realizó en el acto operatorio, colocándose el tejido en gamma formalina a 10% para su traslado a Anatomía patológica. El abordaje quirúrgico se decidió al momento de evaluar la tomografía computada, pudiendo haber tenido variación en el acto quirúrgico. Se utilizó el programa Epi-Info versión 7 del CDC de Atlanta para el análisis de los datos;

en todas las variables se obtuvieron frecuencias, porcentaje y análisis de tendencia central.

RESULTADOS

Se incluyeron 36 pacientes con edad entre 21 y 68 años, con media de edad de 40.5 ± 13.4 años; el intervalo de edad con mayor número de pacientes con pólipos fue de 40 a 49 años, con predominio del sexo femenino. De acuerdo con la procedencia, 23 pacientes (63.9%) eran del área rural. En cuanto a la escolaridad, 25 pacientes (69.4%) habían cursado educación primaria (**Cuadro 1**).

De las manifestaciones clínicas referidas por los pacientes con rinosinusitis crónica polipoidea predominaron los síntomas de obstrucción nasal (**Cuadro 2**).

Cuadro 1. Distribución de edad según sexo de pacientes con rinosinusitis crónica polipoidea (n = 36)

Límites de edad (años)	Masculino n (%)	Femenino n (%)	Total n (%)
20-29	5 (13.9)	2 (5.6)	7 (19.5)
30-39	4 (11.1)	6 (16.6)	10 (27.7)
40-49	3 (8.3)	8 (22.2)	11 (30.5)
50-59	0	2 (5.6)	2 (5.6)
> 60	2 (5.6)	4 (11.1)	6 (16.7)
Total	14 (38.9)	22 (61.1)	36 (100.0)

Cuadro 2. Manifestaciones clínicas de pacientes con rinosinusitis crónica polipoidea

Manifestación clínica*	Núm. (%)
Obstrucción nasal	35 (97.2)
Rinorrea	31 (86.1)
Alteraciones olfativas	26 (72.2)
Algas faciales	24 (66.7)
Existencia de masas	14 (38.9)
Epistaxis	12 (33.3)
Picor o estornudos	12 (33.3)
Tos	4 (11.1)

*Datos no excluyentes.

En la tomografía computada, lo más comúnmente observado fue sinusitis maxilar bilateral con pólipos nasales en 10 pacientes (27.7%) y pansinusitis con pólipos en 10 pacientes (27.7%); en los 12 reportes restantes (33.3%) se encontraron pólipos nasales y rinosinusitis en uno de los senos paranasales. En 2 reportes había hallazgos de microcalcificaciones en los senos maxilares que eran compatibles con enfermedad micótica a corroborar mediante estudios de laboratorio e histopatológicos.

El tratamiento médico prescrito se describe en el **Cuadro 3**, la combinación más reportada fue la de esteroides inhalados y antihistamínicos.

A todos los pacientes se les realizó cirugía endoscópica nasal, entre los hallazgos se reportaron bolas fúngicas en cuatro pacientes, dos de los cuales tenían diagnóstico previo de diabetes mellitus y un paciente con antecedente de acromegalia.

De los 36 pacientes operados, a 20 (55.6%) se les realizaron estudios anatomo-patológicos que reportaron pólipos en el 100% de la mues-

tra; además, sincrónicamente se encontró en un paciente un papiloma nasal invertido en la fosa nasal izquierda y pólipos en la fosa nasal derecha; se encontraron diferentes tejidos y se enviaron en muestras separadas.

DISCUSIÓN

La rinosinusitis crónica polipoidea es el resultado de un proceso inflamatorio crónico de la mucosa de los senos paranasales, este mecanismo explica las manifestaciones clínicas y el manejo; esta enfermedad es más frecuente en el sexo masculino, en contraste con lo encontrado en este estudio donde dominó la manifestación en el sexo femenino, al igual que lo reportó Astuñagüe.⁷ Según lo reportado en las guías EPOS,³ Toledano y su grupo⁶ identificaron 63% en el sexo masculino. En Estados Unidos la rinosinusitis crónica es frecuente en mujeres; sin embargo, al acompañarse de pólipos nasales se torna más frecuente en hombres.⁸

La rinosinusitis crónica polipoidea se reporta entre la cuarta y quinta décadas de la vida;^{1,3} los resultados obtenidos revelan la misma tendencia, con media de edad obtenida de 40.5 ± 13.4 años, similar a lo reportado por Corona-Hernández y colaboradores,⁵ Tan y su grupo,⁸ y Castillo y colaboradores,⁹ pero según datos de Caro y su grupo,¹⁰ la edad de manifestación fue mayor, porque la media de edad fue de 47.9 ± 13.6 .

Según los criterios EPOS,³ se encontró que todos los pacientes tuvieron obstrucción nasal,¹¹ resultado más constantemente identificado, similar al reportado por Salazar.¹² La obstrucción puede tener implicación en la concentración en 90% de los individuos que la padecen, como lo reporta Arslan y colaboradores,¹³ además, refiere que los pacientes recuperan sus funciones con el manejo adecuado. La rinorrea fue el segundo síntoma en importancia.¹⁴ En São Paulo, Brasil, Haro y

Cuadro 3. Tratamiento aplicado a los pacientes con rinosinusitis crónica polipoidea en el servicio de otorrinolaringología del Hospital Escuela

Tratamiento*	Núm. (%)
Farmacológico	
Esteroides tópicos	33 (91.7)
Antihistamínicos	30 (83.3)
Lavados nasales	13 (36.1)
Antibióticos	8 (22.2)
Esteroides sistémicos	6 (16.7)
Quirúrgico	
Endoscópico	36 (100)
Abierto	0

*Datos no excluyentes.



su grupo⁴ reportaron que 60% de los individuos estudiados tenían rinorrea, cifra inferior a la de este estudio.

Los trastornos olfativos podrían ser el primer síntoma en aparecer en la evolución de la rinosinusitis crónica con pólipos nasales; sin embargo, debido a que la persona no le presta tanta importancia, ha sido relegado.⁴ En la mayoría de los casos se reporta como hiposmia de conducción o transmisión.¹⁵ Haro y colaboradores⁴ reportan solo 20% de los pacientes, cifra menor a la de esta investigación (72.2%), al igual que el estudio de Salazar,¹² en el que solo 18% reportó hiposmia.

El dolor facial es referido como un criterio mayor en el diagnóstico de rinosinusitis crónica; sin embargo, la guía EPOS³ refiere que solo una minoría de sujetos experimenta dolor facial. Un estudio para caracterizar el dolor facial asociado con la rinosinusitis crónica mediante el uso de instrumentos validados de evaluación del dolor no encontró evidencia significativa en la manifestación del dolor en individuos con o sin pólipos;¹⁶ en este estudio 66.7% reportaron dolor, en comparación con lo hallado por Eweiss y su grupo¹⁷ con solo 16% de los pacientes.

El diagnóstico puede complementarse con otras pruebas para determinar el grado de obstrucción (rinomanometría), así como pruebas inmunológicas o alérgicas (citología moco nasal, IgE sérica y eosinófilos en moco o histopatología); las más aceptadas son la endoscopia nasal y la tomografía computada (TC).¹⁸ En esta serie a 27.8% de los pacientes se les realizó endoscopia, aunado a 38.9% de los casos en que era evidente la existencia de masas como síntoma y 16.7% más que eran evidentes a la rinoscopia anterior, sumando 83.3% de los casos donde se encontró evidencia de pólipos nasales. La TC se realizó en pacientes en quienes el tratamiento médico no fue eficaz para descartar otras enfermedades

previo a la intervención quirúrgica y así plantear el abordaje necesario, además, para evitar tratamientos o cirugías innecesarios.¹⁸ A 88.9% se les realizó TC antes de la cirugía.

En este estudio se diagnosticó clínicamente y se complementó el estudio mediante endoscopia nasal y TC. El tratamiento farmacológico con esteroides tópicos, antihistamínicos y lavados nasales ayudaron a mejorar las condiciones de vida. El tratamiento farmacológico es el primer pilar en la terapia rinosinusal crónica polipoidea, los esteroides tópicos nasales son el primer paso en el manejo médico, diversos estudios han probado la eficacia en el control de los síntomas y en la reducción de los pólipos. Éstos se dan como tratamiento médico combinado, así como antes y después de la cirugía para control inflamatorio, como lo determinan Orlandi y colaboradores;¹⁹ 91.7% de los pacientes recibieron este tratamiento, a excepción de los sujetos en los que las masas obstruían el vestíbulo y no permitían la aplicación; sin embargo, el 100% recibió tratamiento tópico posquirúrgico. Se prefiere esta vía a la sistémica por los efectos adversos que causan y estadísticamente no se ha evidenciado que sean superiores a la tópica.³ Orlandi y su grupo¹⁹ no recomiendan la administración de antibióticos como tratamiento de la poliposis, en esta serie solo 16.7% de los pacientes recibió antibiótico antes de la cirugía debido a exacerbación aguda de infección. En caso de rinorrea, Piroimchai y colaboradores²⁰ recomiendan la combinación de lavados nasales y esteroides tópicos.

Al 100% de los pacientes se les hizo cirugía endoscópica nasosinusal (CENS), pilar en el tratamiento quirúrgico; está indicada cuando el tratamiento médico adecuado no es suficiente para lograr la mejoría, tiene como ventajas que es mínimamente invasiva, permite remover los pólipos, la mucosa inflamatoria, la ampliación del ostium, lo que mejora la ventilación y la función sinusal.^{2,3,21} El diagnóstico definitivo

de los pólipos nasales es el estudio histopatológico, Wong y su grupo²² consideran que no es necesario realizar histopatología de rutina, sobre todo en poliposis bilateral; sin embargo, tampoco aconsejan dejar de realizarla dejando al cirujano ejercer un juicio individual de cada caso. En esta serie se obtuvieron casos con sinusitis fúngica, es conocida la asociación de sinusitis fúngica alérgica en pacientes con poliposis;^{1,3} sin embargo, no existe un consenso sobre la administración de antimicóticos, ya sea tópicos o sistémicos debido a que el tratamiento de elección es la cirugía.³

En esta muestra se encontró papiloma nasal invertido en un paciente con pólipos nasales, el papiloma nasal invertido como diagnóstico en pacientes con poliposis es muy bajo (< 1%),²³ la prevalencia del virus del papiloma humano en pólipos nasales es de 15.1%.²⁴ Almeida de Sousa y colaboradores²³ encontraron en 42.4% de sus pacientes con pólipos nasales, papiloma nasal invertido, mientras que Ojeda y su grupo²¹ reportaron 2 papilomas nasales invertidos y síndrome linfoproliferativo de 46 pacientes con diagnóstico clínico de rinosinusitis crónica polipoidea. Ambos estudios destacan la importancia de la confirmación histopatológica y de realizarla en todos los pacientes. En los 36 pacientes se hizo cirugía endoscópica, con estudio histopatológico en 55.6% que confirmó el diagnóstico.

CONCLUSIONES

En este estudio se observó que la rinosinusitis crónica polipoidea fue más frecuente en mujeres, entre la cuarta y quinta décadas de la vida; predominó el síntoma de obstrucción nasal.

El diagnóstico fue clínico, apoyado mediante la endoscopia nasal y tomografía computada, confirmado por histopatología, que fue importante para identificar otros diagnósticos asociados,

como el papiloma nasal invertido, como en el caso comunicado.

El tratamiento farmacológico más prescrito fue el esteroide tópico, culminando en todos con cirugía endoscópica nasal.

REFERENCIAS

1. Bonfils P. Poliposis nasosinusal. EMC – Otorrinolaringología [Internet] 2012. doi: 10.1016/S1632-3475(12)60866-2
2. Castro D, Abrante A, Esteban F. Tratamiento de la poliposis nasosinusal con microdebridador: estudio de 321 casos. Anales de Sociedad Andaluza de Otorrinolaringología 2014; 17-22.
3. Fokkens WJ, Lund VJ, Hopkins C, Hellings PW, Kern R, Reitsma S, et al. European position paper on rhinosinusitis and nasal polyps 2020. Rhinology 2020; 58 (29 Supl): 1-464. DOI: 10.4193/Rhin20.600
4. Haro JI, Gavioli F, Junior VM, Crespo CC. Clinical aspects of patients with nasal polyposis. Int Arch Otorhinolaryngol 2009; 13 (3): 259-263.
5. Corona-Hernández LE, Jiménez-Chobillon MA, Peña-Mirabal ES. Caracterización del compartimento leucocitario de los pólipos nasosinuales. An Orl Mex 2016; 61 (2): 119-130.
6. Toledano A, Herráiz C, Navas C, García M, Navarro M, Galindo A. Estudio epidemiológico en pacientes con poliposis nasal. Acta Otorrinolaringol Esp. 2008; 59 (9): 427-474. doi: 10.1016/S0001-6519(08)75115-X
7. Astuñague-González KM. Tratamiento, complicaciones y recurrencia de poliposis nasosinusal en el Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Regional Honorio Delgado entre los años 2009-2014 [Tesis]. Arequipa, Perú: Universidad Nacional de San Agustín de Arequipa; 2015.
8. Tan BK, Kern RC, Schleimer RP, Schwartz BS. Chronic rhinosinusitis: The unrecognized epidemic. Am J Respir Crit Care Med 2013; 188 (11): 1275-7. Doi: 10.1164/rccm.201308-1500ED
9. Castillo BM, Tapia L, Ricardo M, Cuevas SM. Epidemiología de la poliposis nasal. Fronteras en Medicina 2018; 13 (1): 18-21.
10. Caro-Vásquez CM, Miranda-Machado PA, Milanés-Pérez RI. Pólipos nasales en rinosinusitis crónica. Factores asociados. AAIC 2014; 1 (2): 0051-0057.
11. Hirsch AG, Stewart WF, Sundaresan AS, Young AJ, Kennedy TL, Scott GJ, et al. Nasal and sinus symptoms and chronic rhinosinusitis in a population-based sample. Allergy 2017; 72: 274-281. doi: 10.1111/all.13042
12. Salazar Yagual SM. Correlación de aspectos clínicos e histopatológicos en la poliposis nasal. [Tesis en internet].



- [Guayaquil]: Universidad de Guayaquil; [Internet]. 2018 [citado 2 May 2019].
13. Arslan F, Tasdemir S, Durmaz A, Tosun F. The effect of nasal polyposis related nasal obstruction on cognitive functions. *Cogn Neurodyn* 2018; 12 (4): 385-39. doi: 10.1007/s11571-018-9482-4
 14. Cabrera-Ramírez MA, Domínguez-Sosa MS, Borkoski-Barreiro SA, Falcón-González JC, Ramos-Maxías A. Análisis y resultados de la cirugía endoscópica nasosinusal en rinosinusitis crónica con pólipos. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2016; 68 (2): 80-85. doi: 10.1016/j.otorri.2016.04.004
 15. Carrillo VB, Carrillo AV, Astorga VA, Hormachea FD. Diagnóstico en la patología del olfato: Revisión de la literatura. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2017; 77 (3): 351-360. doi: 10.4067/s0718-48162017000300351
 16. De Conde AS, Mace JC, Ashby S, Smith TL, Orlandi RR, Alt JA. Characterization of facial pain associated with chronic rinosinusitis using validated pain evaluation instruments. *Int Forum Allergy Rhinol* 2015; 5: 682-690. doi: 10.1002/alr.21539
 17. Eweiss AZ, Lund VJ, Barlow J, Rose G. Do patients with chronic rinosinusitis with nasal polyps suffer with facial pain? *Rhinology* 2013; 51 (3): 231-235. doi: 10.4193 / Rhino12.087
 18. Guía para el diagnóstico y tratamiento de los pólipos nasales en el adulto México [Internet]. IMSS, 2011. Disponible en: <http://www.imss.gob.mx/profesionales/guiasclinicas/gpc.html>
 19. Orlandi RR, Kingdom TT, Hwang PH, et al. International Consensus Statement on Allergy and Rhinology: Rhinosinusitis. *Int Forum Allergy Rhinol* 2016; 6: S22-S209. doi: 10.1002/alr.21695
 20. Piroomchai P, Kasemsiri P, Laohasiriwong S, Thanaviratananich S. Chronic rhinosinusitis and emerging treatment options. *Int J Gen Med* 2013; 7 (6): 453-64. Doi: 10.2147/IJGM.S29977
 21. Ojeda A, Muñoz D, Seymour M C, Naser G A. Correlación diagnóstico clínico e histopatológico en cirugía endoscópica nasosinusal. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2012; 72 (1): 33-38. <http://dx.doi.org/10.4067/S0718-48162012000100005>
 22. Wong J, Hoffbauer S, Yeh DH, Rotenberg B, Gupta M, Sommer DD. The usefulness of routine histopathology of bilateral nasal polyps—a systematic review, meta-analysis, and cost evaluation. *J Otolaryngol Head Neck Surg* 2015; 44: 46. doi: 10.1186/s40463-015-0100-8
 23. Almeida de Sousa AM, Vicenti AB, Speck FJ, Cahali MB. Retrospective analysis of 26 cases of inverted nasal papillomas. *Braz J Otorhinolaryngol* 2012; 78 (1): 26-30. Doi: 10.1590/S1808-86942012000100004
 24. Knör M, Tziridis K, Agaimy A, Zenk J, Wendler O. Human papillomavirus (HPV) prevalence in nasal and antrochoanal polyps and association with clinical data. *PLoS ONE* 2015; 10 (10). doi: 10.1371/journal.pone.0141722



Utilización de diversos métodos de conservación de cartílago septal. Comparación de cuatro sistemas

Use of different conservation methods of septal cartilage. A comparison of four systems.

Juan Eugenio Salas-Galicia,¹ Héctor Ramírez-Ojeda,² Fausto López-Infante,⁴ Rodolfo Sánchez-Cisneros³

Resumen

OBJETIVO: Comparar diversos métodos de conservación de cartílago septal.

MATERIAL Y MÉTODO: Estudio prospectivo, longitudinal, analítico, observacional, en el que del 1 de marzo de 1987 al 1 de marzo de 1988 se tomaron cartílagos septales de pacientes sanos a los que se les efectuó septumplastia electiva y se conservaron en cuatro medios diferentes: solución salina a 0.9%, solución Hartmann, merthiolate blanco al 1:1000 y alcohol etílico a 70% en refrigeración estándar de 5°C. Se realizaron estudios histológicos con microscopio de luz de las muestras y bacteriológico de los medios de conservación a 30, 60, 90, 180 y 365 días.

RESULTADOS: Los cartílagos presentados en solución salina y solución Hartmann se mantuvieron bien conservados hasta 365 días, mientras que los conservados en merthiolate blanco y alcohol mostraron diversos grados de alteraciones nucleares y citoplasmáticas desde 30 días. Los muestreos bacteriológicos fueron negativos en todos los grupos.

CONCLUSIONES: Los cartílagos septales se conservan en buen estado en solución Hartmann o solución salina a 0.9% en refrigeración estándar a 5°C hasta 365 días.

PALABRAS CLAVE: Cartílago; solución salina; solución Hartmann; trasplantes.

Abstract

OBJECTIVE: To compare different methods of conservation of septal cartilage.

MATERIAL AND METHOD: A prospective, longitudinal, analytical, observational study was done from March 1st 1987 to March 1st 1988, in which septal cartilage was taken from healthy patients undergoing elective septumplastia and stored in four different media: 0.9% saline, Hartmann solution, 1:1000 white merthiolate and 70% ethyl alcohol in standard refrigeration of 5°C. Histological studies with light microscopy of the samples and bacteriological studies of the storage media were carried out at 30, 60, 90, 180 and 365 days.

RESULTS: Cartilage presented in saline and Hartmann solution remained well preserved up to 365 days, while those preserved in white merthiolate and alcohol showed varying degrees of nuclear and cytoplasmic alterations from 30 days. Bacteriological samplings were negative in all groups.

CONCLUSIONS: Septal cartilages are conserved in good state in Hartmann or saline solution at 0.9% in standard refrigeration of 5°C up to 365 days.

KEYWORDS: Cartilage; Saline solution; Hartmann solution; Transplants.

¹ Otorrinolaringólogo y cirujano de cabeza y cuello. Práctica privada, Veracruz, Ver., México.

² Práctica privada.

³ Jefe del servicio de Anatomía Quirúrgica, Hospital Regional 20 de Noviembre, ISSSTE, Ciudad de México.

⁴ Rinólogo, práctica privada.

Recibido: 16 de octubre 2020

Aceptado: 19 de octubre 2020

Correspondencia

Juan Eugenio Salas Galicia
eugeniosalas@prodigy.net.mx

Este artículo debe citarse como

Salas-Galicia JE, Ramírez-Ojeda H, López-Infante F, Sánchez-Cisneros R. Utilización de diversos métodos de conservación de cartílago septal. Comparación de cuatro sistemas. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 168-174.



INTRODUCCIÓN

Este trabajo surgió de la necesidad de crear un banco de cartílagos para los servicios de otorrinolaringología y cirugía plástica y reconstructiva de nuestro hospital; durante varios años estos servicios han venido aplicando injertos cartilagosos homólogos conservados en merthiolate blanco al 1:1000 con antibióticos del tipo aminoglucósidos, específicamente kanamicina o gentamicina, con buenos a regulares resultados pero sin poder conservarlos por más de un mes sin que muestren datos de deshidratación y lisis celular, por lo que se decidió tomar una nueva alternativa conservándolos en solución salina a 0.9% o solución Hartmann por ser los medios en que se conservan los cartílagos transoperatoriamente y por isotónicas en relación con el líquido intercelular.

El cartílago septal es uno de los materiales de injerto más usados por sus propiedades biológicas, su falta de reacción alergizante y de fácil obtención, ya que, según los reportes estadísticos de nuestro hospital, la septoplastia electiva es el procedimiento quirúrgico más frecuente.

ANTECEDENTES

Al revisar la bibliografía mundial encontramos que existen pocos trabajos específicos de la investigación del medio óptimo para la conservación de cartílagos septales, el más reciente de éstos es el presentado por López Infante y Macayza en mayo de 1986 en el XXXVI Congreso Nacional de la SMORL y CCC en Puerto Vallarta, en el que conserva el cartílago en solución salina en congelación hasta un año con buenos resultados. Existen muchos otros artículos que mencionan el uso de merthiolate blanco al 1:1000 y del alcohol etílico a 70% como medios de conservación de injertos cartilagosos con aplicación en otología, laringología y ortopedia, la mayor parte de ellos en refrigeración a 5°C.

El cartílago es una variedad de tejido conectivo especializado de origen mesenquimatoso del que existen tres tipos: elástico, fibroso y hialino, a este último grupo pertenece el cartílago septal, que está constituido por una porción celular y una intercelular o matriz cartilaginosa. La primera está formada por los condrocitos que pueden estar solos o agrupados en cavidades pequeñas dentro de la matriz, llamados nidos celulares; los condrocitos son células esféricas con un núcleo grande, esférico central con uno o más nucléolos. Su citoplasma es granular fino y moderadamente basófilo a consecuencia de muchos ribosomas libres y de un retículo endoplásmico granuloso, además contiene mitocondrias, grandes vacuolas y gotas de grasa (**Figura 1**).

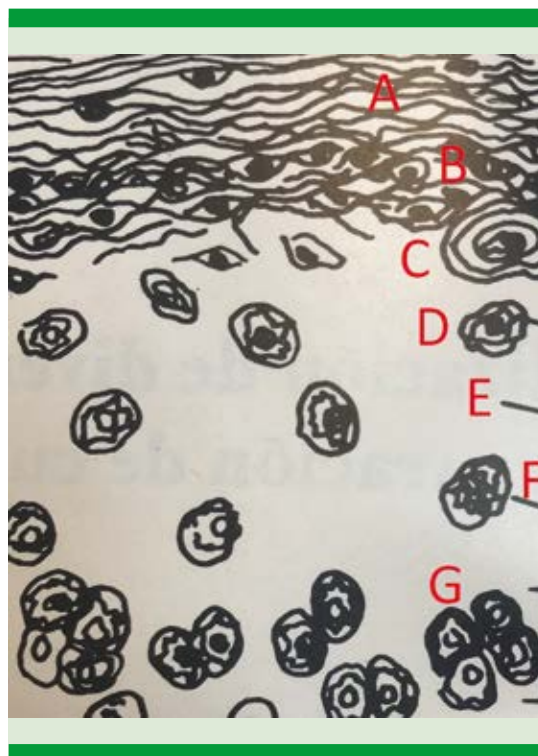


Figura 1. A. Capa fibrosa del pericondrio. B. Capa condrógena del pericondrio. C. Crecimiento por oposición. D. Condrocito en una laguna. E. Sustancia intercelular. F. Crecimiento intersticial. G. Nido celular.

El componente intercelular o matriz es un gel de consistencia firme, constituida por una porción amorfa, basófila por su contenido de condromucina y ácido condroitin sulfúrico y otra parte constituida por fibras de colágena.

El cartílago tiene dos formas de crecimiento, el crecimiento intersticial o endógeno dado por la reproducción de condrocitos jóvenes y elaboración de matriz y el crecimiento por aposición o exógeno dado por la emigración de fibroblastos del pericondrio hacia la matriz de cartílago transformándose en condrocitos. La característica única que permite que los injertos cartilagosos sobrevivan es que sus células se nutren por difusión a través de la sustancia intercelular, que impide que el cuerpo receptor reconozca las características antigénicas y más aún impide que los anticuerpos o las células destructoras entren en contacto con los condrocitos (Figura 2).

MATERIAL Y MÉTODO

Estudio prospectivo, longitudinal, analítico, observacional, en el que del 1 de marzo de 1987 al 1 de marzo de 1988 las muestras de cartílagos septales se tomaron al azar de pacientes sanos a los que se les hizo septumplastia electiva, se les retiró el pericondrio, se lavaron con solución salina a 0.9% y se eliminaron los fragmentos machacados, que se depositaron en frascos estériles de boca ancha. Los cartílagos se conservaron en solución salina a 0.9%, solución Hartmann, merthiolate blanco a 1:1000 y alcohol etílico a 70% en refrigeración estándar a 5°C.

Estas muestras se analizaron a 30, 60, 90, 180 y 365 días, efectuándose estudio bacteriológico de las soluciones al momento de tomarse el cartílago para ser fijado en formaldehído a 10% para su estudio histológico con microscopio de luz. Se excluyeron las muestras de pacientes con antecedentes infecciosos, como: hepatitis, sífilis,

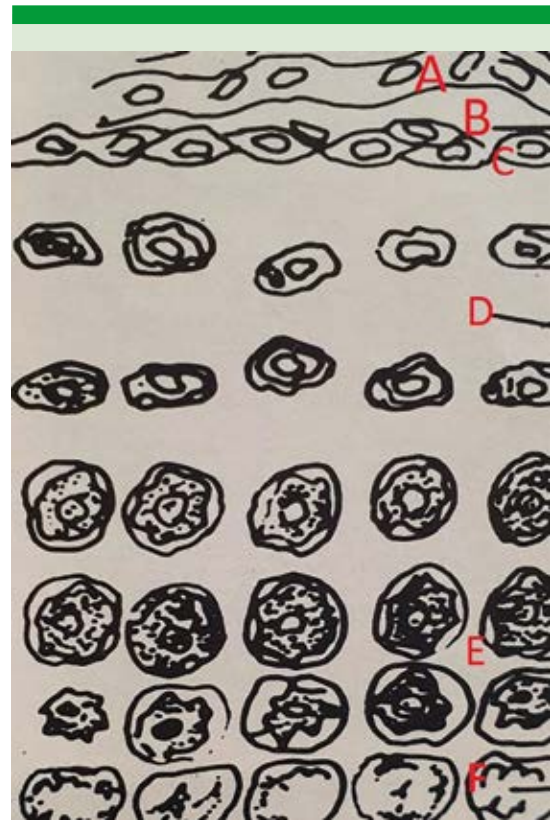


Figura 2. A. Capilar. B. Líquido tisular. C. Células condrógenas. D. Difusión a través de un gel. E. Gel calcificado. F. Células muertas.

paludismo, herpes, infecciones por citomegalovirus y, desde luego, pacientes en quienes se sospechara tuvieran SIDA (Cuadro 1).

Cuadro 1. Material y métodos

Días	Solución salina	Solución de Hartman	Merthiolate	Alcohol
30	M15	F38	M32	M23
60	M39	M18	M25	F22
90	F23	M22	F28	M25
180	M18	F19	M25	M32
365	M25	F28	F23	M19

Control: F33. Edad promedio: 26.8 años.



RESULTADOS

Se tomaron 20 muestras en total, 5 de cada grupo y una muestra en fresco para control. Del total de 20 muestras, 13 fueron de pacientes masculinos y 7 de pacientes femeninos. Los límites de edad fueron 15 y 39 años; con promedio de 26.8 años.

El estudio químico de la solución Hartmann y la solución salina a 0.9% mostraron que ambas soluciones son isotónicas en relación con el líquido intersticial y el plasma (**Cuadro 2**).

El merthiolate blanco a 1:1000 y el alcohol etílico a 70% mostraron ser soluciones sumamente hipotónicas en relación con el líquido intercelular y el plasma, de ahí que produzcan plasmólisis a las células que se pongan en contacto directo (**Cuadro 3**).

En cartílagos septales conservados en solución Hartmann y solución salina a 30 días no se encontraron alteraciones y a 60, 90, 180 y 365 días se encontraron bien conservados con ocasionales picnosis y cariopsis; macroscópicamente todas las muestras eran de características normales (**Figuras 3 a 6**).

Los cartílagos septales conservados en merthiolate blanco al 1:1000 y alcohol etílico a 70% mostraron zonas de picnosis, cariorrexis, cariolitis y lisis celular difusa, así como degeneración vacuolar desde los 30 días y macroscópicamente se encontraron las muestras endurecidas y con francos datos de deshidratación (**Cuadro 4 y Figuras 7 y 8**).

Los estudios bacteriológicos efectuados a los medios de conservación fueron negativos para

Cuadro 2. Comparación de la osmolaridad de las soluciones salina y Hartmann con el líquido intersticial

Líquido intersticial		Solución salina		Solución Hartmann	
Cationes Na = 144 K = 4 Ca = 3 Mg = 2	Aniones Cl = 114 HCO ₃ = 30 SO ₄ = 1.5 PO ₄ = 1.5 Ácidos orgánicos = 5 Proteína = 1	Cationes Na = 154	Aniones Cl = 154	Cationes Na = 130 K = 4 Ca = 2.7	Aniones Cl:109 HCO ₃ = 28
Isotónico pH = 7.35 mOsm/l L = 290-310 Vehículo = H ₂ O		Isotónico pH = 5 mOsm/L = 308 Vehículo = H ₂ O		Isotónico pH = 6.5 mOsm/L = 272 Vehículo = H ₂ O	

Cuadro 3. Comparación de la osmolaridad del merthiolate blanco y alcohol etílico con el líquido intersticial

Líquido intersticial		Merthiolate blanco	Alcohol etílico
Cationes Na = 144 K = 4 Ca = 2 Mg = 2	Aniones Cl = 114 SO ₄ = 1.5 PO ₄ = 1.5 Ácidos orgánicos = 5 Proteína = 1	Tiomersal 0.025 mEq/L 000Na 5-Hg-CH ₂ -CH ₃	Etanol 0.032 mEq/L CH ₃ -CH ₂ OH
Isotónico pH = 7.35 mOsm/L = 290-310 Vehículo = H ₂ O		Hipotónico pH = 10.85 mOsm/L = 0.025 Vehículo = alcohol etílico a 70%	Hipotónico pH = 7.2 mOsm/L = 0.293 Vehículo = H ₂ O



Figura 3. Micrografía de cartílago septal con caracteres histológicos normales (H-E 100X).

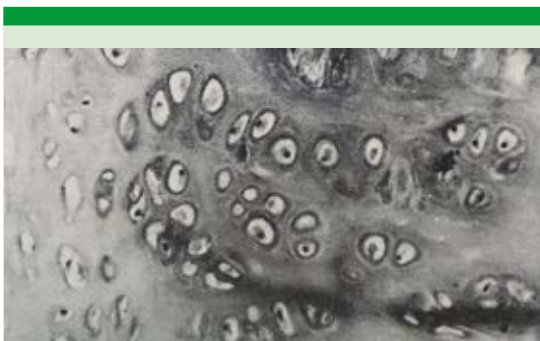


Figura 4. Micrografía de cartílago septal conservado durante 30 días en solución Hartmann en el que no se observan alteraciones histológicas (H-E 160X).

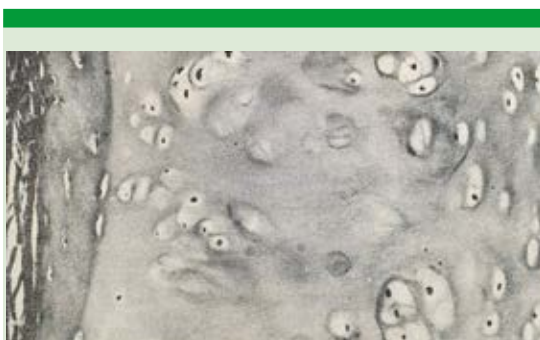


Figura 5. Micrografía de cartílago septal conservado en solución salina a 0.9% durante 90 días. Se observa en la parte central superior cromatolisis local con lagunas sin núcleo, el resto del cartílago se encontró en general bien conservado (H-E 160X).

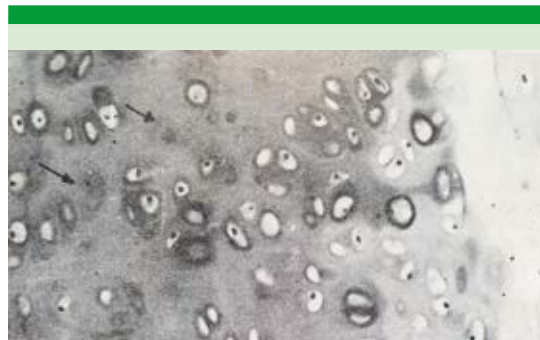


Figura 6. Micrografía de cartílago septal conservado en solución salina a 0.9% durante 365 días. Se observa cromatolisis mínima (flecha). El resto de cartílago en general bien conservado (H-E 160X).

Cuadro 4. Resultados del estudio histopatológico

Solución salina y Hartmann	Merthiolate blanco y alcohol etílico
30 días: no se encuentran alteraciones	Zonas de cariólisis y cariorrexis Degeneración vacuolar
60 días: en general bien conservado	Zonas de lisis celular
90 días: en general bien conservado	Zonas de picnosis, cariorrexis y cariólisis
180 días: en general bien conservado	Zonas de cariorrexis, cariólisis y lisis celular
365 días: en general bien conservado	Extensas zonas de picnosis, cariólisis, cariorrexis y lisis celular

aerobios y para anaerobios desde 30 a 365 días (**Cuadro 5**).

DISCUSIÓN

Con este trabajo deseamos destacar la importancia de crear un banco de cartílago para hacer innecesaria la toma de autoinjertos cartilagosos disminuyendo así el tiempo y costo quirúrgico, así como las molestias y posibles complicaciones para el paciente en el sitio de la toma.



Figura 7. Micrografía de cartílago septal conservado en merthiolate blanco al 1:1000 durante 30 días. Se observa degeneración vacuolar escasa (flecha) [H-E 400X].



Figura 8. Micrografía de cartílago septal conservado en merthiolate blanco al 1:1000 durante 60 días. Se observa cromatolisis celular difusa (H-E 63X).

La refrigeración estándar a 5°C se llevó a cabo en un refrigerador casero, de ahí la facilidad de poder conservar nuestro banco en el consulto-

rio o en el servicio de otorrinolaringología de cualquier hospital.

Debido a que el cartílago septal pueda ser reservorio de enfermedades transmisibles, como: hepatitis B, herpes, paludismo, infecciones por citomegalovirus o SIDA, no es factible porque el cartílago hialino es un tejido avascular que se nutre por difusión a través de una matriz intercelular que impide que se pongan en contacto con las células destructoras y anticuerpos del cuerpo receptor con los condrocitos del cuerpo donador. No existe por el momento trabajo específico de transmisión de SIDA por trasplantes de cartílago, pero sí hay reportes de trasplantes de córnea de donadores asintomáticos hasta el momento de su muerte, pero que en los estudios de ELISA *postmortem* fueron positivos; en estos casos se realizó un seguimiento de dos años a los receptores sin encontrar anticuerpos contra VIH (virus de la inmunodeficiencia humana) tal vez por ser la córnea un tejido avascular, como lo es el cartílago hialino, pero sí creemos que debe evitarse utilizar muestras de pacientes de alto riesgo y sospechosos.

No existe por el momento método de conservación de cartílagos septales más sencillo y económico que la preservación en solución Hartmann o salina a 0.9% en refrigeración estándar a 5°C.

CONCLUSIONES

Los cartílagos septales se conservan en buen estado en solución Hartmann o solución salina

Cuadro 5. Resultados del estudio bacteriológico

Días	Solución salina	Solución Hartmann	Merthiolate	Alcohol
30	Negativo	Negativo	Negativo	Negativo
60	Negativo	Negativo	Negativo	Negativo
90	Negativo	Negativo	Negativo	Negativo
180	Negativo	Negativo	Negativo	Negativo
365	Negativo	Negativo	Negativo	Negativo

a 0.9% en refrigeración estándar a 5°C hasta 365 días.

Los cartílagos septales conservados en merthiolate blanco al 1:1000 o alcohol etílico a 70% muestran datos de degeneración celular desde los 20 días.

La solución Hartmann, la solución salina a 0.9%, el merthiolate blanco al 1:1000 y el alcohol etílico a 70% como medios de conservación de cartílago septal en refrigeración estándar a 5°C se mantienen estériles hasta 365 días.

BIBLIOGRAFÍA

- Naujos J, Ohnsorge P, Hormung S. Consulting office tissue banks. *HNO* 1978; 26: 325-9.
- López Infante F, Mocayta H. Una manera diferente de conservar los cartílagos para ser usados en cirugía nasal. XXXVI Congr Nal de la SMORL y CCC, Puerto Vallarta, Mayo 1986.
- Kerr A, Byme J, Smyth G. Cartilage homografts in the middle ear: A long-term histological study. *J Laryngol Otol* 1973; 87: 1193-9. doi: 10.1017/s0022215100078166
- Ham A. *Histology* 7th ed. WB Saunders Co. Philadelphia, 1975; 343-51.
- Leeson R, Leeson T. *Histology*. 3rd edition. WB Saunders Co. Philadelphia, 1976; 126-51.
- Gutiérrez C, Stoksted P. Columella implants. Reconstruction of the anterior septum. *Arch Otolaryngol* 1982; 108: 243-6. doi:10.1001/archotol.1982.00790520043012
- McCarthy L. Establishing a preserved cartilage bank. *Plast Rec Surg* 1948; 3: 283-6.
- Iwanaga N, Mori H, Yamamoto E, Toda Y, Fukumoto M. The fate of Homologous nasal septal cartilages in tympanoplasty. *Acta Otolaryngol (Stockh)* 1986; 101: 206-13. doi: 10.3109/00016488609132843
- Pappas J, Bailey H, Mc Grew R, Graham S. Homograft septal cartilage for attic support in intact canal Wall tympanomastoidectomy and timpanoplasty. *Laryngoscope* 1981; 91: 1457-62.
- Yamamoto E, Iwanaga M, Morinaka S. Use of micro-sliced homograft cartilage plates in tympanoplasty. *Acta Otolaryngol* 1985; 419: 123-9.
- Laurian N, Zohar Y, Turani H. Histologic findings in Larynx reconstructed by a nasoseptal autograft after partial laryngectomy. *Laryngoscope*, 1983; 93: 1481-2.
- Butcher R, Dunham M. Composite nasal septal cartilage graft for reconstruction after extended frontolateral hemilaryngectomy. *Laryngoscope* 1984; 94: 959-62. doi: 10.1288/00005537-198407000-00019
- Martinelly D, Janowak M. Repair of laryngeal stenosis with nasal septal graft. *Ann Otol* 1976; 85: 600-8. <https://doi.org/10.1177%2F000348947608500506>
- Laurian N, Zohar Y. Laryngeal reconstruction by composite nasalmucoseptal graft after partial laryngectomy. Three years followup. *Laryngoscope* 1981; 91: 609-16. doi: 10.1288/00005537-198104000-00015
- Zohar Y, et al. Laryngeal reconstruction by composite nasoseptal graft after extended partial laryngectomy. Twelve-year follow-up. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1988; 114 (8): 868-871. doi:10.1001/archotol.1988.01860200052016
- Duncancavage J, Tohill R. Composite nasal septal graft reconstruction of the partial laryngectomized canine. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1978; 86: 285-90. doi: 10.1177/019459987808600219
- Jakse R, Wolfgruber H. Use of allogeneic septal cartilage in the correction of the saddle nose. *Laryngol Rhinol Otol* 1986; 62: 679-83.
- Tardy E, Denny J, Fritsch M. The versatile cartilage autograft in the reconstruction of the nose and face. *Laryngoscope* 1985; 95: 523-33. doi: 10.1288/00005537-198505000-00003
- Peer L, Walker C. Behavior of autogenous septal cartilage after transplantation in human tissue. *Arch Otolaryngol* 1943; 38: 156-62.
- Peer L. Fate of autogenous septal cartilage after transplantation in human tissue. *Arch Otolaryngol* 1941; 34: 696-709. doi: 10.1001/archotol.1941.00660040752002
- Malinin T, Martinez O, Brown M. Banking of massive osteoarticular and intercalary bone allograft. 12 years experience. *Clin Orthop Relat Res* 1985; 197: 44-50.
- Sabiston D. *Tratado de patología quirúrgica*. 7ª ed. Interamericana. 1980; 88-110.
- Litter M. *Compendio de farmacología*. 2ª ed. El Ateneo, 1979; 486-507.
- Pepose J, Pardo F, Kessler J, et al. Screening cornea donors for antibodies against human immunodeficiency virus. *Ophthalmology* 1987; 94: 95-9. [https://doi.org/10.1016/S0161-6420\(87\)33489-X](https://doi.org/10.1016/S0161-6420(87)33489-X)
- Pepose J, McRaes H, Queen R, et al. The impact of the AIDS epidemic on corneal transplantation. *Am J Ophthalmology* 1985; 100: 610-13. doi: 10.1016/0002-9394(85)90692-0
- Conte J. Infection with human immunodeficiency virus in the hospital. *Ann Intern Med* 1986; 105: 730-6. <https://doi.org/10.7326/0003-4819-105-5-730>



Bocio intratorácico compresivo: una manifestación atípica

Compressive intrathoracic goiter: an atypical presentation.

Alan Barker-Antonio,¹ Ediel Osvaldo Dávila-Ruiz,¹ Roberto Armando García-Manzano,¹ Sergio Vásquez-Ciriaco²

Resumen

ANTECEDENTES: El bocio intratorácico se define como crecimiento de la glándula tiroidea que se encuentra parcial o totalmente en el mediastino; los pacientes pueden manifestar síntomas de obstrucción debido a la compresión progresiva de la tráquea, el síntoma obstructivo más común es la disnea de esfuerzo, que está presente en 30 a 60% de los casos.

CASO CLÍNICO: Paciente femenina de 60 años que inició su padecimiento con tumores en el cuello, edema facial y red venosa colateral acompañados de disnea de medianos esfuerzos; refirió tener que dormir con tres almohadas debido a que no podía estar en decúbito dorsal por disnea; manifestaba dolor en el cuello tipo punzante sin irradiación, además de dificultad a la deglución de alimentos sólidos en ocasiones.

CONCLUSIONES: El tratamiento de elección contra el bocio intratorácico con síntomas compresivos es la resección total de la glándula tiroidea.

PALABRAS CLAVE: Bocio; bocio intratorácico; tiroidectomía.

Abstract

BACKGROUND: Intrathoracic goiter is defined as growth of the thyroid gland that is partially or totally in the mediastinum; patients may develop symptoms of obstruction due to progressive compression of the trachea; the most common obstructive symptom is dyspnea on exertion, which is present in 30% to 60% of cases.

CLINICAL CASE: A 60-year-old female patient who began suffering with tumors at the neck level, facial edema and collateral venous network accompanied by dyspnea on medium efforts. She referred to having to sleep with 3 pillows because she could not be in supine position due to dyspnea; presented with stabbing neck pain without irradiation in addition to difficulty swallowing solid food at times.

CONCLUSIONS: The treatment of choice for intrathoracic goiter is total resection of the thyroid gland.

KEYWORDS: Goiter; Intrathoracic goiter; Thyroidectomy.

¹ Departamento de Cirugía General.

² Departamento de Cirugía Oncológica. Hospital Regional de Alta Especialidad de Oaxaca, Oaxaca, México.

Recibido: 1 de septiembre 2020

Aceptado: 15 de octubre 2020

Correspondencia

Alan Barker Antonio
drbarker91@gmail.com

Este artículo debe citarse como

Barker-Antonio A, Dávila-Ruiz EO, García-Manzano RA, Vásquez-Ciriaco S. Bocio intratorácico compresivo: una manifestación atípica. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 175-180.

ANTECEDENTES

El bocio intratorácico se define como el crecimiento de la glándula tiroides que se extiende al tórax y que puede localizarse total o parcialmente en el mediastino;¹ el crecimiento de la glándula es de más de 50% del tejido tiroideo por debajo del opérculo torácico.² Representa aproximadamente 5% de todos los tumores mediastínicos resecaados^{3,4} y en la mayoría de los casos se localiza en el mediastino anterior.⁵

La prevalencia en Estados Unidos es de 0.02 a 0.5% y su principal variedad histológica es el bocio multinodular donde incluso 8% pueden llegar a ser malignos. Tiene predominio femenino (de 3:1 a 5:1.3); aparece después de los 20 años de edad, es más frecuente entre la cuarta y quinta décadas de la vida.⁶

Los pacientes con bocio intratorácico pueden padecer síntomas de obstrucción como disnea, masa cervical palpable, odinofagia, disfagia, disfonía, estridor y síndrome de vena cava superior debido a la compresión progresiva de la tráquea; el síntoma obstructivo más común es la disnea de esfuerzo, que está presente en 30 a 60% de los casos y generalmente ocurre cuando el diámetro traqueal es menor de 8 milímetros.⁷

Una vez que sobrevienen los síntomas obstructivos, se requiere la resección de la glándula tiroides porque existe el riesgo de mayor crecimiento de la tiroides y compresión traqueal progresiva, que en algunos casos puede ser rápida y fatal.⁸ Para el tratamiento del bocio obstructivo, se recomienda la cirugía como tratamiento de elección en lugar de yodo radiactivo; sin embargo, en los pacientes con síntomas obstructivos que no pueden o no quieren someterse a una cirugía, la terapia con yodo radioactivo es una opción alternativa; hay que tomar en cuenta que la reducción del volumen de la tiroides con el yodo radioactivo es solo moderada y existen

controversias en relación con que el yodo radioactivo podría empeorar de forma aguda la obstrucción o una neoplasia maligna perdida.⁹ La mayor parte de los bocios intratorácicos obstructivos son benignos; su principal causa es el bocio multinodular (51%), seguido del adenoma folicular y la tiroiditis crónica autoinmunitaria; en los pacientes con nódulos dentro de un bocio que son malignos o sospechosos de malignidad deberá realizarse una biopsia por aspiración con aguja fina y el tratamiento debe ser la cirugía.¹⁰

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 60 años, que inició su padecimiento con dos tumores a nivel supraclavicular, bilateral, de consistencia blanda, móvil y no dolorosa con aumento progresivo de tamaño de siete años de evolución, se agregó edema facial y red venosa colateral en el cuello (**Figura 1**); la paciente acudió a valoración por nuestro servicio al padecer disnea de medianos



Figura 1. Edema facial, cuello y red venosa colateral debido a compresión.



esfuerzos, refirió tener que dormir con tres almohadas por no poder tolerar la posición de decúbito dorsal por disnea, también refirió dolor en el cuello tipo punzante 7/10, sin irradiación además de dificultad a la deglución de alimentos sólidos en ocasiones.

La tomografía de cuello simple y contrastada evidenció la glándula tiroides con aumento de tamaño de manera difusa en el lóbulo derecho de 114 x 39 x 44 mm y del lado izquierdo de 78 x 38 x 39 mm en ejes mayores con parénquima homogéneo; ambas venas yugulares con compresión extrínseca en el tercio medio por aumento del volumen tiroideo con paso filiforme del medio de contraste (**Figura 2**).

Las pruebas de función tiroidea reportaron: TSH: 0.7 mU/L, T3 libre: 3.5 pg/mL, T4 libre: 0.8 ng/L, T4 total: 7.3 µg/dL, T3 total: 0.9 ng/mL. La BAAF guiada por ultrasonido resultó

con BETHESDA I, por lo que se programó para realizar tiroidectomía total con abordaje cervical cuyos hallazgos fueron: glándula tiroides de 15 x 10 x 5 cm, multilobulada con localización en 80% intratorácico con compresión de ambas venas yugulares internas y tronco braquiocefálico (**Figura 3**).

El reporte histopatológico de la pieza quirúrgica (**Figura 4**) fue: tejido tiroideo con hallazgos de bocio multinodular, sin signos de malignidad, con dilataciones quísticas que contenían material coloidal, inflamación crónica e histiocitos espumosos.

DISCUSIÓN

Desde su descripción en 1749 por Haller, el bocio intratorácico ha recibido diversas denominaciones, como retroesternal, subclavicular o mediastínico, debido a que se ha definido con

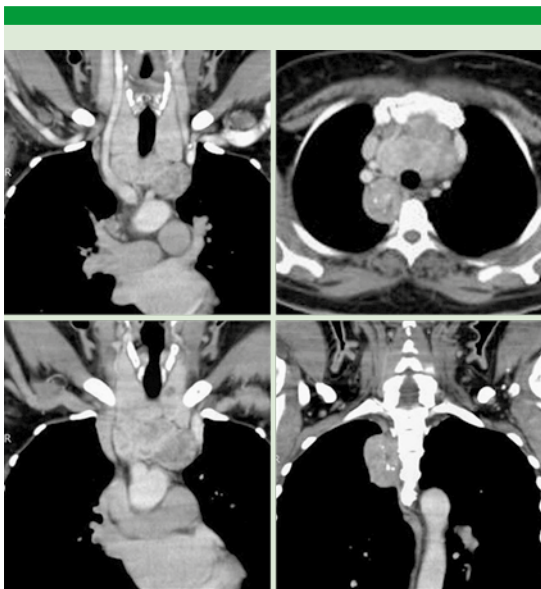


Figura 2. Diferentes proyecciones de la tomografía de tórax que muestra el bocio intratorácico que comprime venas yugulares.

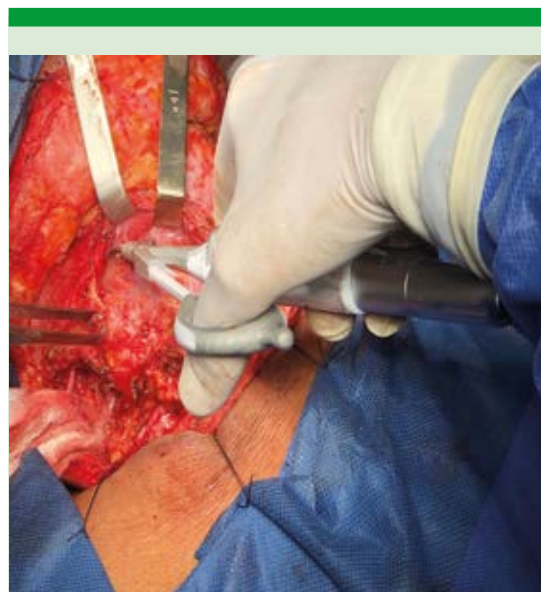


Figura 3. Uso de bisturí armónico para la disección y extracción de la glándula tiroides por vía cervical.



Figura 4. Pieza quirúrgica que muestra la glándula tiroidea multilobulada.

critérios poco uniformes en cuanto al volumen de tiroides que debe estar en situación intratorácica o a qué nivel debe descender, lo que conlleva a una incidencia dispar en las distintas series, en función del criterio utilizado.¹¹ La manifestación clínica es muy diversa e inespecífica, con mayor frecuencia se manifiestan signos obstructivos de la vía aérea, como en este caso, por lo que se requieren imágenes diagnósticas, como la radiografía de tórax que evalúa la ubicación de la masa mediastínica, el desplazamiento o compresión de estructuras adyacentes, así como la existencia de calcificaciones. La tomografía de tórax es el mejor estudio para caracterizar límites con estructuras intratorácicas, es útil para identificar la causa y planificar el mejor abordaje quirúrgico; la gammagrafía se utiliza para estimar el estado funcional, naturaleza y extensión; también suele recomendarse realizar una biopsia con aguja fina en los bocios intrato-

rácicos porque es útil para el análisis histológico previo a la cirugía.¹²

La cirugía es el tratamiento ideal para los pacientes con bocio intratorácico con síntomas obstructivos y deben ser derivados a un cirujano de tiroides o de cabeza y cuello experimentado porque las tasas de complicaciones son menores en los centros de gran volumen; una vez que se ha tomado la decisión de realizar la cirugía, la evaluación preoperatoria del bocio intratorácico debe incluir laringoscopia porque la compresión del nervio laríngeo inferior puede producir parálisis o paresia de las cuerdas vocales; además, el riesgo de lesión nerviosa es mayor en el bocio intratorácico por lo que es trascendental conocer el estado preoperatorio de las cuerdas vocales.¹³

Si el paciente es hipertiroides y la cirugía es electiva, debe administrarse un fármaco antitiroideo y, si no está contraindicado, un bloqueador beta durante varias semanas antes de la cirugía; los pacientes con hipertiroidismo subclínico no necesitan estar preparados con un fármaco antitiroideo.¹⁴

La mayor parte de los bocios intratorácicos pueden researse mediante una incisión cervical estándar en más de 95% de los casos, como el de nuestra paciente; cuando una gran parte de la glándula se encuentra dentro del tórax, con tiroidectomía cervical previa, bocios muy grandes o cáncer invasivo, es posible que se requiera un abordaje mediante esternotomía parcial o completa o incluso una toracotomía. En un estudio italiano de 19,662 pacientes a los que se les practicó tiroidectomía total en seis centros, 1055 tenían bocio subesternal y solo 69 (6.5%) requirieron esternotomía.¹⁵

La extensión de la cirugía para el tratamiento del bocio benigno depende de la experiencia del cirujano; debido al riesgo de bocio recurrente, debe realizarse una tiroidectomía total o casi



total, a menos que durante el procedimiento el cirujano considere que una operación menos extensa es prudente debido a mayor riesgo de lesión recurrente del nervio laríngeo o hipoparatiroidismo a causa de consideraciones anatómicas; las principales complicaciones de la cirugía de los bocios grandes y los bocios subesternales son las lesiones de los nervios laríngeos recurrentes, la tráquea y las glándulas paratiroides.¹⁶

En este caso las principales dificultades técnicas que encontramos fueron el tamaño del bocio y su localización, pues permitía poco espacio para identificar estructuras, lo que generó mayor sangrado; generalmente en el caso del bocio intratorácico la movilización de la tiroides no suele ser fácil, por lo que recomendamos que la disección debe comenzar por la movilización del lóbulo piramidal, abriendo el espacio crico-tiroideo; disecando el polo tiroideo superior y preservando el nervio laríngeo superior; continuando con ligadura del pedículo superior y así éste se va liberando gradualmente, en nuestro caso con ayuda del bisturí armónico.

En los casos de bocio intratorácico debe evitarse traccionar hacia arriba la tiroides con el dedo introducido entre la masa y el estrecho torácico, porque puede producir una lesión del nervio laríngeo recurrente, una hemorragia profusa o ambos. Hay que identificar el nervio laríngeo inferior cerca de su entrada en la laringe y una vez localizado cerca del ligamento de Berry, se avanza con una disección en dirección cráneo-caudal; una vez liberada la tiroides de la tráquea, el componente intratorácico puede ser recuperado en el cuello traccionando suavemente hacia arriba.¹⁷

CONCLUSIONES

El bocio intratorácico es una enfermedad poco frecuente en nuestro medio; cuyo tratamiento de

elección, cuando se manifiestan síntomas compresivos de la vía aérea y de los vasos cervicales o torácicos, es la resección total de la glándula tiroides y debe ir acompañada de un manejo perioperatorio multidisciplinario cuidadoso y bien planificado para garantizar la recuperación exitosa.

REFERENCIAS

1. Carrillo-Esper R, Carrillo-Córdova DM, Cabello-Aguilera R. Bocio intratorácico normofuncionante. *Med Int Méx* 2020; 36 (1): 265-271. <https://doi.org/10.24245/mim.v36i2.2958>
2. Huang WC, Huang C-H, Hsu CH, et al. Intrathoracic goiter in elderly patients. *Int J Gerontol* 2013; 7: 8-12. <https://doi.org/10.1016/j.ijge.2012.01.027>
3. Schlumberger MJ, Filetti S, Alexander EK, Hay ID. Nontoxic diffuse goiter, nodular thyroid disorders, and thyroid malignancies. In: Melmed S, Koenig R, Rosen C, Auchus R, Goldfine A, eds. *Williams Textbook of Endocrinology*. 13 ed. Philadelphia, PA: Elsevier; 2016: 449-488.
4. Katlic MR, Grillo HC, Wang CA. Substernal goiter: analysis of 80 patients from Massachusetts General Hospital. *Am J Surg* 1985; 149: 283-287. doi: 10.1016/s0002-9610(85)80086-6
5. Foroulis CN, Rammos KS, Sileli MN, Papakonstantinou C. Primary intrathoracic goiter: A rare and potentially serious entity. *Thyroid* 2009; 19: 213-218. doi: 10.1089/thy.2008.0222
6. Moreno-Madrugal LG. Bocio intratorácico. *Rev Cient Cienc Med* 2018; 21 (1):94-95.
7. Erbil Y, Bozboru A, Barbaros U, et al. Surgical management of substernal goiters: clinical experience of 170 cases. *Surg Today* 2004; 34 (9): 732-6. doi: 10.1007/s00595-004-2823-4
8. Chen AY, Bernet VJ, Carty SE, et al. American Thyroid Association statement on optimal surgical management of goiter. *Thyroid* 2014; 24 (2): 181-9. doi: 10.1089/thy.2013.0291
9. Hashemy AA, Gallo R, Shah MT, et al. Giant intrathoracic goitre: The challenges. *Int J Surg Open* 2016; 2: 6-10. <https://doi.org/10.1016/j.ijso.2016.02.001>
10. Vaiman M, Bekerman I, Basel J, Peer M. Surgical approach to the intrathoracic goiter. *Laryngoscope Investig Otolaryngol* 2018; 3 (2): 127-132. doi: 10.1002/lio.2.146
11. Shaha AR. Substernal goiter: what is in a definition. *Surgery* 2010; 147 (2): 239-40. DOI: 10.1016/j.surg.2009.10.066
12. Iriarte MB, Morales EI, Velásquez M, Zúñiga V, Sua LF, Fernández-Trujillo L. Giant intrathoracic goiter of atypical presentation: a case report. *Clin Pathol* 2020; 13: 1-4. doi: 10.1177/2632010X20916741

13. Allo MD, Thompson NW. Rationale for the operative management of substernal goiters. *Surgery* 1983; 94 (6): 969-77.
14. Hegedus L, Bonnema SJ. Approach to management of the patient with primary or secondary intrathoracic goiter. *J Clin Endocrinol Metab* 2010; 95: 5155-62. doi: 10.1210/jc.2010-1638
15. Shambaugh GE 3rd, Seed R, Korn A. Airway obstruction in substernal goiter. Clinical and therapeutic implications. *J Chronic Dis* 1973; 26 (11): 737-43. [https://doi.org/10.1016/0021-9681\(73\)90069-6](https://doi.org/10.1016/0021-9681(73)90069-6)
16. Shen WT, Kebebew E, Duh QY, Clark OH. Predictors of airway complications after thyroidectomy for substernal goiter. *Arch Surg* 2004; 139 (6): 656-60. doi: 10.1001/archsurg.139.6.656
17. Ríos A, Sitges-Serra A. Tratamiento quirúrgico del bocio intratorácico. *Cir Esp* 2012; 90 (7): 421-428. DOI: 10.1016/j.ciresp.2012.01.003



Colesteatoma con autocavidad de mastoidectomía en una paciente con síndrome progeroide

Cholesteatoma with mastoidectomy autocavity in a progeroid syndrome patient.

Samantha Valdés-Pineda,¹ Jaqueline Ramírez-Anguiano,¹ Lorena Enríquez-Figueroa,¹ Alexia Esquinca-González²

Resumen

ANTECEDENTES: El colesteatoma es una estructura quística con epitelio escamoso productor de queratina, que sustituye o recubre la mucosa normal en el oído medio; su origen es multifactorial, se clasifica en congénito o adquirido. El tratamiento definitivo es quirúrgico y tiene como objeto erradicar la enfermedad. Los pacientes con síndrome progeroide tienen mayor riesgo de padecer alteraciones en el oído medio como el colesteatoma; por otro lado, la displasia ectodérmica hipohidrótica ocasiona alteraciones glandulares que aumentan la frecuencia de infecciones crónicas nasales y óticas.

CASO CLÍNICO: Paciente femenina de 24 años de edad con colesteatoma con autocavidad de mastoidectomía derecha con antecedentes de síndrome progeroide, probable síndrome de Wermer y displasia ectodérmica hipohidrótica, manejado con tratamiento conservador, sin complicaciones a 10 años de seguimiento.

CONCLUSIONES: El colesteatoma de oído medio es una afección infrecuente que, a pesar de su histología benigna, puede ocasionar complicaciones graves, por lo que el tratamiento es quirúrgico y tiene como objetivo erradicar la enfermedad.

PALABRAS CLAVE: Colesteatoma; displasia ectodérmica hipohidrótica.

Abstract

BACKGROUND: Cholesteatoma is a cystic structure with the presence of keratin-producing squamous epithelium, which replaces the normal mucosa in the middle ear; its etiology is multifactorial, it is classified as congenital or acquired. Definitive treatment is surgical and aims to eradicate the disease. Patients with progeroid syndrome have an increased risk of presenting alterations in the middle ear such as cholesteatoma; hypohidrotic ectodermal dysplasia causes glandular disorders that increases the frequency of chronic infections at nasal and otic level.

CLINICAL CASE: A 24-year-old female patient with cholesteatoma with right mastoidectomy autocavity with a history of progeroid syndrome, probable Wermer syndrome and hypohidrotic ectodermal dysplasia, managed with conservative treatment, without complications after 10 years of follow-up.

CONCLUSIONS: Cholesteatoma of middle ear is an infrequent disease that, despite of its benign histology, may cause severe complications; thus, treatment is surgical, and its aim is to eradicate the disease.

KEYWORDS: Cholesteatoma; Hypohidrotic ectodermal dysplasia.

¹ Departamento de Otorrinolaringología.

² Departamento de Infectología. Instituto Nacional de Ciencias Médicas y Nutrición Salvador Zubirán, Ciudad de México.

Recibido: 18 de marzo 2020

Aceptado: 7 de septiembre 2020

Correspondencia

Samantha Rossina Valdés Pineda
valdes_samantha@hotmail.com

Este artículo debe citarse como

Valdés-Pineda S, Ramírez-Anguiano J, Enríquez-Figueroa L, Esquinca-González A. Colesteatoma con autocavidad de mastoidectomía en una paciente con síndrome progeroide. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 181-185.

ANTECEDENTES

El colesteatoma es una masa quística de células epiteliales escamosas queratinizadas dentro de las cavidades del oído medio. Es de origen multifactorial y se clasifica en congénito, adquirido primario como complicación de una otitis media crónica, adquirido secundario por invaginación de la membrana timpánica y adquirido iatrogénico posterior a una timpanostomía o timpanoplastia. Es más frecuente en niños y hombres entre la tercera y cuarta décadas de la vida.^{1,2}

A pesar de su histología benigna, la acumulación de queratina puede causar infección, reabsorción ósea por expansión, osteólisis, pérdida auditiva, parálisis del nervio facial, fístula laberíntica, erosión del oído medio e interno y complicaciones intracraneales potencialmente mortales, como abscesos cerebrales, meningitis y tromboflebitis del seno lateral.³

Es importante sospecharlo en pacientes con antecedente de otorrea persistente, otalgia e hipoacusia y en pacientes con comorbilidades con factores de riesgo de padecer alteraciones en el oído medio. El examen otoscópico revelará restos blanquecinos de queratina y tejido de granulación dentro del oído medio.⁴ Una vez establecido el diagnóstico, el tratamiento definitivo es la escisión quirúrgica.⁵

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 24 años de edad, con antecedentes de síndrome progeroide, probable síndrome de Wermer y displasia ectodérmica hipohidrótica, en control por los servicios de Dermatología, Genética y Medicina Interna del Instituto. Inició hacía más de 10 años con cuadros recurrentes de rinosinusitis, hipoacusia derecha progresiva, otalgia punzante y otorrea derecha, por lo que fue referida a la consulta de

otorrinolaringología. A la exploración física se observó: nariz con tabique funcional, mucosa pálida, cornetes ausentes, abundante moco amarillento espeso; la orofaringe con amígdalas intravélicas y descarga retronasal purulenta, muy espesa.

Oído izquierdo: pabellón auricular bien formado e implantado con excoriaciones en la piel, conducto auditivo externo estrecho con cerumen que se retiró y membrana timpánica íntegra; oído derecho con pabellón auricular bien formado e implantado con excoriaciones en la piel, conducto auditivo externo estrecho con secreción purulenta y queratina que se aspiró, no se observó membrana timpánica ni cadena osicular.

La audiometría tonal lúdica valoró solo umbrales aéreos debido a la poca cooperación de la paciente, por el retraso del desarrollo psicomotor que tenía y reveló hipoacusia moderada en el oído derecho (vía aérea) y audición normal con caída superficial a moderada en tonos agudos en el oído izquierdo (**Figura 1**).

La tomografía computada de senos paranasales y oídos en fase simple mostró ocupación de celdillas etmoidales anteriores y posteriores izquierdas, complejo ostiomeatal izquierdo cerrado, nivel hidroaéreo en el seno maxilar izquierdo, ausencia de cornetes y en el oído derecho, cambios correspondientes a formación de autocavidad de mastoidectomía sin datos de complicaciones (**Figura 2**).

Se estableció el diagnóstico de otitis media crónica derecha con colesteatoma y autocavidad de mastoidectomía, rinosinusitis crónica y otocerosis izquierda; se propuso cirugía funcional endoscópica de senos paranasales y regularización de autocavidad de mastoidectomía con meatoconchoplastia del oído derecho, que no fueron aceptadas por los padres de la paciente.

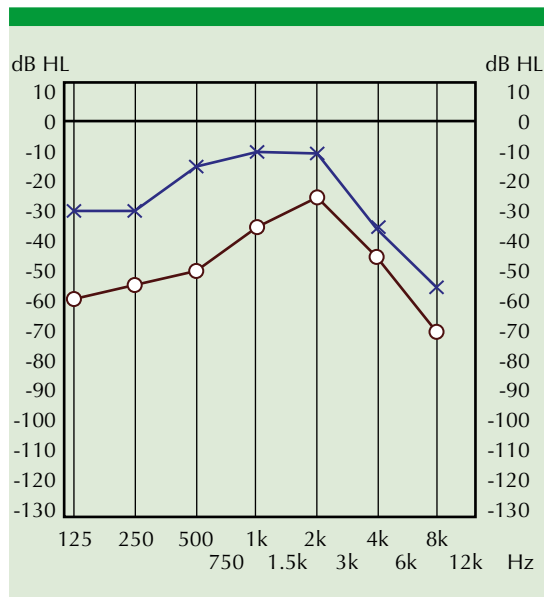


Figura 1. Audiometría tonal (2009). Oído derecho: hipoacusia moderada derecha (vía aérea). Oído izquierdo: audición normal izquierda con caída superficial a moderada en tonos agudos (O: oído derecho vía aérea; X: oído izquierdo vía aérea).

Ha permanecido con tratamiento conservador desde su diagnóstico. Durante los 10 años de seguimiento, ha tenido cuadros recurrentes de otocerosis izquierda y otorrea derecha que se han controlado con limpiezas óticas periódicas, en un inicio cada mes y desde hacía tres años de forma trimestral y con cuidados de oído

seco derecho, así como tratamiento antibiótico oral en caso de requerirlo. También han sido recurrentes las infecciones de las vías aéreas superiores y agudizaciones de la rinosinusitis crónica, tratadas ante las condiciones clínicas con antibióticos orales durante 14 días, mucolíticos del tipo acetilcisteína y lavados nasales con solución fisiológica o agua de mar.

Como parte del control se realizan evaluaciones audiológicas semestrales, con mayor cooperación de la paciente en el transcurso de los años, lográndose obtener una vía aérea y vía ósea; en el audiograma se observa hipoacusia moderada conductiva en el oído derecho y audición normal con caída superficial a moderada en tonos agudos en el oído izquierdo (**Figura 3**). También se realizan tomografías de oídos y senos paranasales de control anual, sin evidencia de complicaciones hasta el momento actual (**Figura 4**).

DISCUSIÓN

El síndrome progeroide es una enfermedad autosómica recesiva, caracterizada por una vejez prematura o acelerada debido a la mutación del gen que codifica para una enzima de reparación del ADN, una helicasa en el cromosoma 8p12-p11.2. Las manifestaciones clínicas comienzan a hacerse evidentes en los primeros años de vida, és-

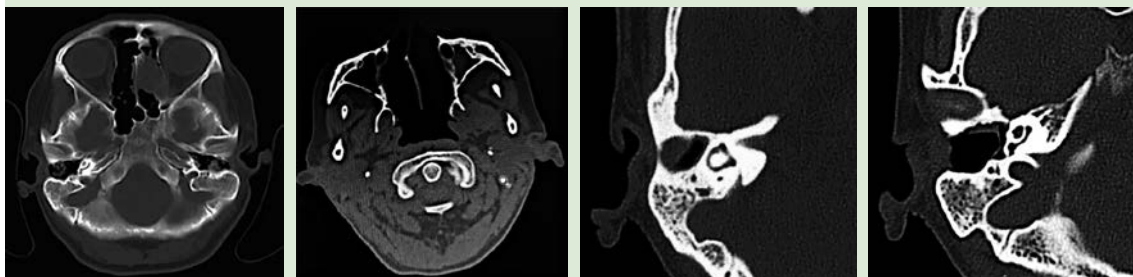


Figura 2. Tomografía computada de senos paranasales y oído derecho en cortes axiales con datos de rinosinusitis crónica y autocavidad de mastoidectomía derecha (2009).

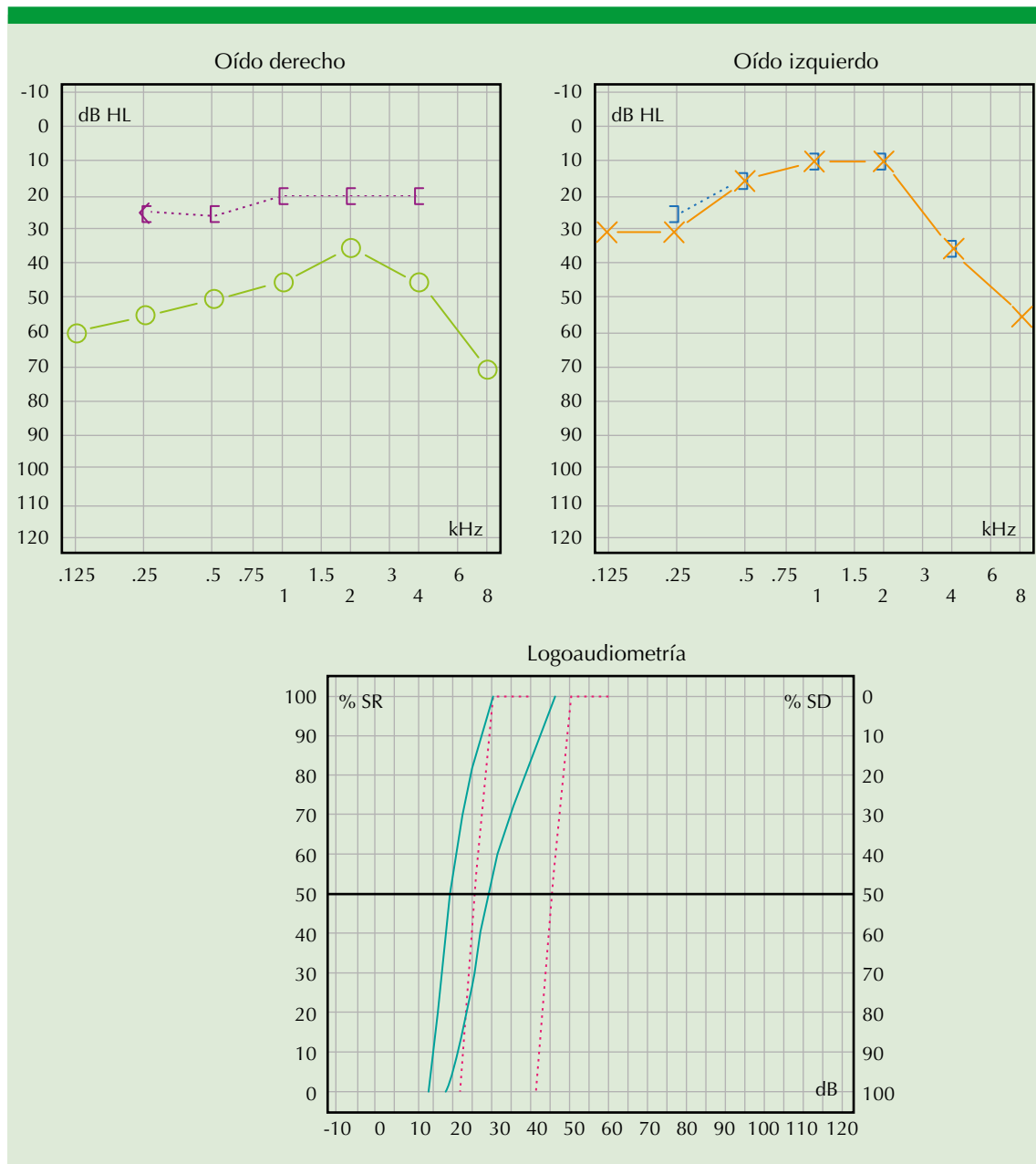


Figura 3. Audiometría tonal (2019). Oído derecho: hipoacusia moderada derecha de tipo conductivo. Oído izquierdo: audición normal izquierda con caída superficial a moderada en tonos agudos (O: oído derecho vía aérea [oído derecho vía ósea, X: oído izquierdo vía aérea] oído izquierdo vía ósea).

tas incluyen: retraso en el crecimiento y desarrollo psicomotor, alteraciones dermatológicas, musculoesqueléticas y neurológicas; también pueden

manifestar problemas dentales y oftalmológicos; a la larga padecen enfermedad cardiovascular, lo que disminuye la esperanza de vida.

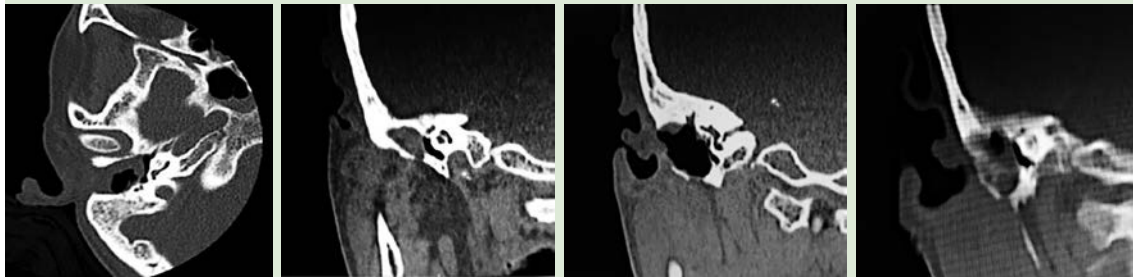


Figura 4. Tomografía computada de oído derecho en cortes axiales y coronales donde se observa autocavidad de mastoidectomía sin datos de complicaciones (2019).

Es frecuente encontrar alteraciones auditivas, como hipoacusia sensorineural, hipoacusia conductiva y anacusia; alteraciones morfológicas del oído medio como hipoplasia o aplasia estapedial y colesteatoma,⁶ como en el caso comunicado. Como otra comorbilidad, la displasia ectodérmica hipohidrótica es una enfermedad genética de herencia autosómica recesiva ligada al cromosoma X caracterizada por disminución de glándulas sudoríparas e hipoplasia de glándulas mucosas del tubo aerodigestivo superior, lo que incrementa la frecuencia de infecciones crónicas, como rinosinusitis, faringitis y otitis, así como epistaxis, disfagia y anodoncia⁷ presentes también en esta paciente; hay pocos casos reportados de ambas enfermedades en la bibliografía; sin embargo, no se identificaron publicaciones de la coexistencia de las mismas en un solo paciente como es este caso.

El tratamiento se enfoca a erradicar la enfermedad en el caso del colesteatoma del oído y en cuanto a las manifestaciones otorrinolaringológicas de la displasia ectodérmica hipohidrótica en mejorar la lubricación de la piel y las mucosas de los ojos, la nariz y la boca, así como control y administración de antibióticos de forma oportuna en caso de infección.

CONCLUSIONES

El colesteatoma de oído medio es una afección infrecuente que, a pesar de su histología benigna, puede ocasionar complicaciones graves, por lo que el tratamiento es quirúrgico y tiene como objetivo erradicar la enfermedad. Los pacientes con síndrome progeroide tienen mayor frecuencia de alteraciones en el oído medio, como el colesteatoma.

REFERENCIAS

1. Quintero NJ, Macías AC, Hernández CM, Meléndez QL. Etiología del colesteatoma ótico. *Rev Cubana Pediatr* 2011; 83 (4): 393-404.
2. Ronald A. Hoffman AR. Complications of Tympanomastoidectomy. En: Eisele WD, Smith VR. *Complications in Head and Neck Surgery*. 2nd ed. NY: Mosby, 2009; 725-728.
3. Bunch MP, Kelly RH. Cholesteatoma. En: Pequeño EJ, Noujaim LD, Ginat TD, Kelly RH, Schaefer WP. *Neuroradiology, Spectrum and Evolution of Disease*. 1^o ed. Philadelphia: Elsevier; 2019: 322-331.
4. Player B. Earache. En: Kliegman MR, Lye SP, Bordini JP, Toth H, Basel D. *Pediatric Symptom-Based Diagnosis*. Nelson. 20th ed. Elsevier; 2018; 61-74.
5. Davis LG. *Ear. Surgical Pathology of the Head and Neck* 2nd ed: Elsevier; 2009; 883-932.
6. Barrios SA, Muñoz OC. Síndrome de Wermer atípico: síndrome progeroide atípico. *An Pediatr (Barc)* 2010; 73 (2): 94-97.
7. González GJ, Muñoz BF. Manifestaciones ORL de la displasia ectodérmica hipohidrótica. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2005; 56: 176-178.



Hemangioma orofaríngeo recidivante en un paciente adulto

Recurrent oropharyngeal hemangioma in an adult patient.

Samantha Valdés-Pineda,¹ Jaqueline Ramírez-Anguiano,¹ Francisco Soroa-Ruiz,¹ María Fernanda Ochoa-Chávez²

Resumen

ANTECEDENTES: Los hemangiomas en la vía aérea superior son un padecimiento común en niños, mientras que en los adultos son muy infrecuentes.

CASO CLÍNICO: Paciente masculino de 42 años, con antecedente de enfermedad de Castleman multicéntrica idiopática, variedad hialino-vascular, VHH-8 y VIH negativos. Inició en 2016 con faringodinia, disfagia a sólidos y sensación de cuerpo extraño en la hipofaringe. A la exploración se encontró una tumoración violácea en la vallécula derecha. Se realizó biopsia por escisión con reporte histopatológico de tumor vascular benigno. Tres días después se observó por laringoscopia nuevo crecimiento. Se realizó una segunda resección con reporte de hemangioma capilar ulcerado. Dos meses después tuvo sensación de cuerpo extraño en la hipofaringe y a la valoración se encontró un tumor en la vallécula derecha color violáceo con base ancha, de gran tamaño, se volvió a reseccionar, pero esta vez requirió traqueotomía por dificultad de vía aérea, ante nuevo crecimiento del hemangioma un mes después del procedimiento, se decidió realizar esclerosis tumoral en cuatro ocasiones, sin éxito, por su carácter recidivante se trató con radioterapia coadyuvante. En la actualidad el paciente está sin recidiva a 12 meses de concluida la radioterapia.

CONCLUSIONES: Es infrecuente encontrar hemangiomas en la vía aérea en el adulto, hay poco descrito al respecto en la bibliografía, por lo que hay varias opciones de tratamiento, la última ante recidivas es la radioterapia.

PALABRAS CLAVE: Hemangioma; vías aéreas; radioterapia; hemangioma capilar; neoplasias vasculares.

Abstract

BACKGROUND: Hemangiomas at upper airway are a common disease in children, while in adults they are very infrequent.

CLINICAL CASE: A 42-year-old HIV-negative man with HHV-8 negative/idiopathic multicentric Castleman disease. His main complaint began in 2016 with odynophagia, dysphagia and globus sensation in the hypopharynx. Physical examination revealed a violet tumor located at the right vallecula. Excisional biopsy reported a benign vascular tumor. Three days after the procedure, a new growth was observed by laryngoscopy. A second resection was performed and revealed an ulcerated capillary hemangioma. Two months later, the patient again referred globus sensation in the hypopharynx and another bigger violet tumor was found at the right vallecula. Resection was performed but due to airway complications, a tracheotomy was required. A month after this last procedure, the tumor reappeared again and was performed four episodes of sclerosis without improvement, by the tumor's relapsing nature, radiotherapy was the chosen treatment option. Twelve months after finishing the last radiotherapy session, the patient has not relapsed.

CONCLUSIONS: Hemangiomas in the adult airway are an infrequent find, this topic is rarely mentioned in publications and radiotherapy is usually considered the last option for treating recurrences.

KEYWORDS: Hemangioma; Upper way; Radiotherapy; Capillary hemangiona; Vascular neoplasms.

¹ Departamento de Otorrinolaringología.

² Departamento de Infectología. Instituto Nacional de Ciencias Médicas y Nutrición Salvador Zubirán, Ciudad de México.

Recibido: 6 de julio 2020

Aceptado: 22 de septiembre 2020

Correspondencia

María Fernanda Ochoa Chávez
ochoa.marifer@gmail.com

Este artículo debe citarse como

Valdés-Pineda S, Ramírez-Anguiano J, Soroa-Ruiz F, Ochoa-Chávez MF. Hemangioma orofaríngeo recidivante en un paciente adulto. An OrL Mex. 2020; 65 (4): 186-190.



ANTECEDENTES

Los hemangiomas en la vía aérea superior son un padecimiento común en niños, mientras que en los adultos son muy infrecuentes, la mayor parte se manifiesta en hombres y son de localización supraglótica.^{1,2} En los pacientes adultos el síntoma más esperado es la disfonía, aunque pueden manifestarse con disfagia y estridor, la dificultad respiratoria es poco frecuente como manifestación inicial.³ Los síntomas pueden estar presentes años previos al diagnóstico. El abordaje generalmente inicia con una laringoscopia indirecta en la que se observan lesiones de características vasculares; sin embargo, el diagnóstico debe apoyarse con estudios de imagen, como la tomografía computada o la resonancia magnética contrastadas, así como una ecotomografía Doppler. El tratamiento de los hemangiomas en la vía aérea superior suele ser quirúrgico, ya sea por resección directa o mediante fotocoagulación con láser Nd-YAG o de CO₂.⁴ Otras opciones de tratamiento son la esclerosis del tumor vascular o dosis altas de prednisona hasta 4 mg/kg de peso a dosis reducción según respuesta de la lesión. Está descrita la radioterapia fraccionada como tratamiento de este tipo de tumores que tienen un carácter recidivante y tienen recurrencias.⁵

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 42 años de edad, con antecedente de enfermedad de Castleman multicéntrica idiopática, variedad hialino-vascular, VHH-8 y VIH negativos. En 2016 inició con un cuadro caracterizado por odinofagia, faringodinia, disfagia a sólidos y sensación de cuerpo extraño en la faringe. Acudió a valoración, a la exploración se encontró una tumoración violácea en la vallécula derecha (**Figura 1**), así como adenopatías cervicales y axilares. Fue abordado como un probable síndrome linfoproliferativo, por lo que se tomó una biopsia de ganglio axilar

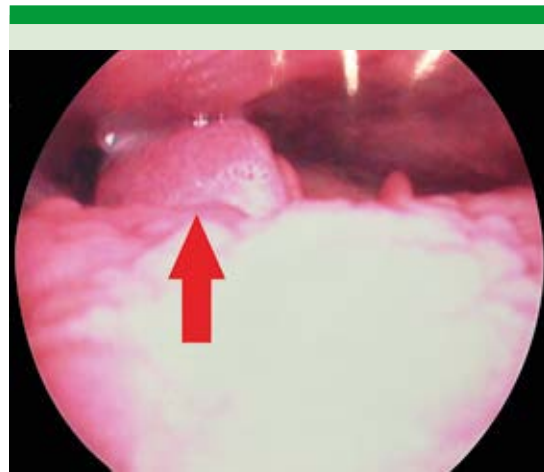


Figura 1. Laringoscopia indirecta 70°. Tumor en la vallécula derecha, color rojo violáceo, de aproximadamente 1 cm de diámetro, con base de implantación ancha, superficie lisa, que no obstruye la vía aérea.

derecho, que se reportó como enfermedad de Castleman variedad hialino vascular con hiperplasia de células dendríticas foliculares. Con este diagnóstico, se administró quimioterapia con R-CHOP. Tras cuatro ciclos de quimioterapia R-CHOP se observó disminución de las adenopatías, así como de la lesión en la vallécula; sin embargo, debido a la localización del tumor se realizó biopsia por escisión del mismo (**Figura 2**), con reporte histopatológico de tumor vascular benigno. Tres días posteriores a la resección se observó por laringoscopia nuevo crecimiento. Se realizó una segunda resección con reporte de hemangioma capilar ulcerado. Se mantuvo en vigilancia observándose un crecimiento rápido en un mes, por lo que se volvió a programar resección tumoral, pero esta vez, debido al gran tamaño del tumor con vía aérea de difícil manejo, requirió traqueostomía previa, sin complicaciones. Se mantuvo en vigilancia cada dos semanas y se retiró traqueostomía al mes de haberse realizado, sin complicaciones y cierre de traqueostoma por segunda intención. Dos meses

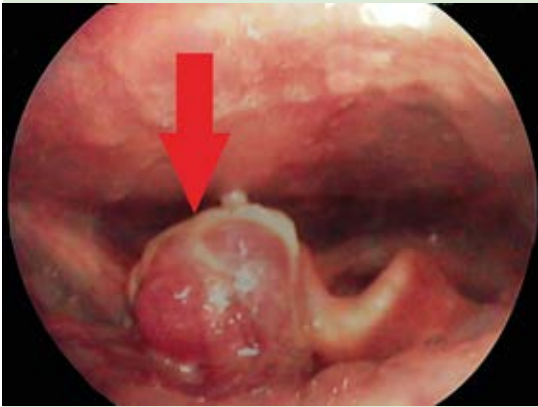


Figura 2. Tumor en la vallécula derecha de 1 cm aproximadamente, base ancha, móvil, color rosado, superficie con áreas blanquecinas. No obstruye la vía aérea, cuerdas vocales sin alteraciones, subglotis libre.

después refirió sensación de cuerpo extraño en la hipofaringe y a la valoración se encontró nuevamente crecimiento de igual localización y mismas características macroscópicas (**Figura 3**). Se valoró al paciente junto con el servicio de ra-



Figura 3. Laringoscopia indirecta 70°. Tumor en la vallécula derecha de 4 cm aproximadamente, base ancha, de color rojizo con fibrina en su superficie. Obstruye la vía aérea.

diología intervencionista para esclerosis tumoral; sin embargo, en la resonancia magnética nuclear no se observó un único vaso nutricional del hemangioma por lo que se decidió dar tratamiento con esclerosis tumoral directa con alcohol absoluto y micropartículas para embolizar, procedimiento que se realizó en cuatro ocasiones sin éxito (**Figura 4**). Después de la última esclerosis se indicó esteroide oral a dosis alta (prednisona 1 mg/kg de peso, dosis reducción) para disminuir la velocidad del crecimiento tumoral sin éxito. Tras este último tratamiento y por el carácter recidivante del hemangioma, previa valoración por el servicio de Radioterapia se decidió tratar

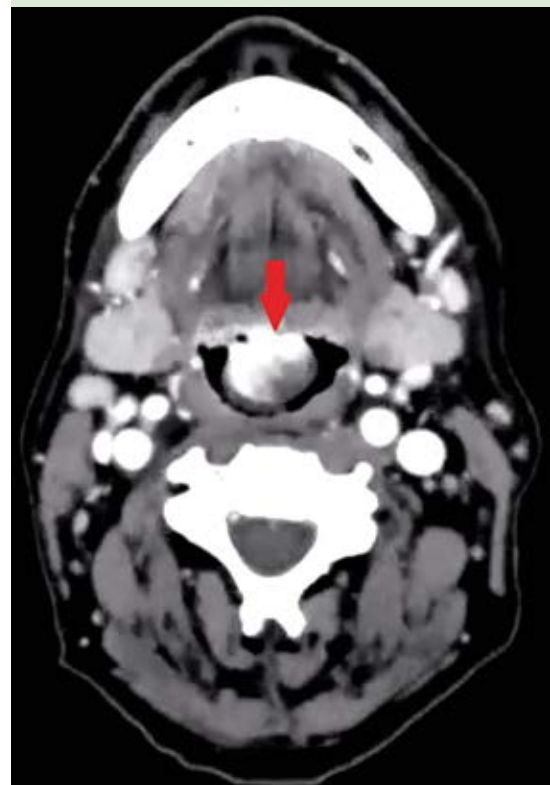


Figura 4. Tomografía contrastada de cuello en corte axial que muestra un tumor orofaríngeo derecho con captación de medio de contraste y múltiples adenopatías cervicales.



con radioterapia coadyuvante, aplicando 50 Gy en 25 sesiones. A 12 meses de concluir la radioterapia no se ha observado nuevamente el hemangioma (**Figura 5**); el paciente únicamente continúa en vigilancia periódica.

DISCUSIÓN

Los hemangiomas en la vía aérea son un padecimiento poco frecuente en el adulto, de los que se desconoce su incidencia debido a la escasa cantidad de casos que se reportan. El paciente del caso comunicado ilustra el ejemplo de un hemangioma orofaríngeo de manifestación en adulto, que no respondió a los primeras líneas de tratamiento descritas en la bibliografía, como la resección tumoral, la escleroterapia o la administración de esteroides vía oral a dosis altas para disminuir la tasa de crecimiento del hemangioma. El paciente tuvo múltiples recidivas y obstrucción de la vía aérea. Por esta razón se decidió como último recurso, tal cual está descrito en la bibliografía, la radioterapia coadyuvante que, aunque está bien descrito su papel curativo, no se considera una opción terapéutica

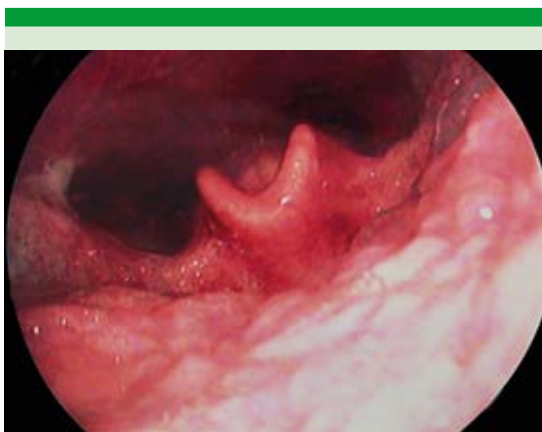


Figura 5. Laringoscopia indirecta 70°, posradiación, ya no se observa hemangioma en la orofaringe, solo se observa sequedad de la mucosa laríngea.

de primera instancia. El paciente obtuvo buena evolución, con remisión completa del hemangioma posterior a la radioterapia y como efecto secundario de la aplicación de la misma, solo se observó sequedad de la mucosa orofaríngea. No es común que este tipo de neoplasias tengan un comportamiento recurrente y agresivo; por el contrario, la mayor parte de los hemangiomas remiten tras un tratamiento quirúrgico único. Anteriormente, en casos agresivos y recidivantes de esta enfermedad se planteaba la resección en bloque como tratamiento definitivo de las recidivas, actualmente ya no es una opción debido a la buena respuesta que tienen los pacientes ante la radioterapia.

El paciente cursaba con enfermedad de Castleman multicéntrica, que es un trastorno linfoproliferativo que se relaciona con hemangiomatosis, en este caso el departamento de hematología descartó que la enfermedad de Castleman tuviese una relación causal con el hemangioma del paciente. Sin embargo, las múltiples adenopatías que el paciente manifestaba sí se atribuyen a la enfermedad de Castleman y, por tanto, el tratamiento inicial con quimioterapia que recibió el paciente en su abordaje fue el adecuado para el tratamiento de las adenopatías, actualmente sin actividad de la enfermedad de base.

De igual manera, cabe destacar que los hemangiomas que se manifiestan en la enfermedad de Castleman aparecen característicamente en la piel de los pacientes; reportados en la bibliografía como hemangiomas glomeruloides, lesiones características de la enfermedad de Castleman con síndrome POEMS.⁶

CONCLUSIONES

En el caso comunicado, el hemangioma capilar ulcerado que manifestó fue una afección independiente a la enfermedad de Castleman.

Los hemangiomas en la vía aérea superior en pacientes adultos son poco comunes y, en general, tienen un curso benigno y no recidivante; por esta razón no hay una línea específica de tratamiento en los casos recidivantes.

Aunque la primera opción terapéutica contra este tipo de neoformaciones sea el tratamiento quirúrgico, en casos de comportamiento agresivo o de recidiva tumoral, la radioterapia muestra muy buena respuesta y puede considerarse una alternativa de tratamiento de segunda línea.

REFERENCIAS

1. Akhtar S, Shamim AA, Ghaffar S, Ahmed MS, Ikram M. Adult laryngeal haemangioma; a rare entity. *J Pak Med Assoc* 2012; 62 (2): 173- 4.
2. Gauna PF, Moreno SP, Abarca SA, Cancino CM, Arregui VR. Hemangioma cavernoso laríngeo en adultos: Reporte de un caso y revisión de la literatura. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2018; 78: 84-88.
3. Bridger GP, Nassar VH, Skinner HG. Hemangioma in the adult larynx. *Arch Otolaryngol* 1970; 92 (5): 493-498. <https://doi.org/10.1001/archotol.1970.04310050075011>
4. Matar N, Remacle MD. *Tratados EMC. Tumores benignos de laringe*. Elsevier Masson, 2015; 1-12. Doi: 10.1016/S1632-3475(15)74183-4
5. Grosu AL, Nieder C. Stereotactic fractionated radiotherapy for recurrent capillary hemangioma of the cavernous sinus. *Strahlenther Onkol* 2006; 182: 179-182. doi: 10.1007/s00066-006-1473-4
6. Chan JK, Fletcher CD, Hicklin GA, Rosai J. Glomeruloid hemangioma. A distinctive cutaneous lesion of multicentric Castleman's disease associated with POEMS syndrome. *Am J Surg Pathol* 1990; 14 (11): 1036-1046. doi: 10.1097/00000478-199011000-00005



Melanoma de la mucosa nasal

Melanoma of the nasal mucosa.

Jorge Alberto Romo-Magdaleno,¹ José Pablo Busto-Ruano,² Laura María Reyes-Ortega³

Resumen

ANTECEDENTES: El melanoma mucoso de cabeza y cuello es una enfermedad infrecuente, con alta tasa de mortalidad. La complejidad de las áreas anatómicas, el crecimiento silente y su alta capacidad de metástasis justifican un peor pronóstico. Asimismo, la falta de conocimiento, protocolos de tratamiento y series de casos clínicos hacen que el abordaje sea controvertido y sujeto a diversas decisiones terapéuticas, por lo que, a pesar de investigaciones realizadas previamente, no se ha logrado aumentar la supervivencia.

CASO CLÍNICO: Paciente masculino de 89 años con una tumoración nasal de un año de evolución que ocasionaba obstrucción nasal, rinorrea purulenta, hiposmia, epistaxis y epífora. El reporte histopatológico documentó un melanoma primario de la mucosa nasal. Debido a su estadificación y en conjunto con el departamento de radio-oncología y oncología médica se decidió realizar tratamiento quirúrgico.

CONCLUSIONES: El melanoma mucoso nasal suele tener peor pronóstico que los que surgen de los sitios cutáneos y la mayoría de los pacientes desarrollan enfermedad recurrente y diseminada.

PALABRAS CLAVE: Melanoma mucoso; tumor de cavidad nasal; mucosa nasal.

Abstract

BACKGROUND: Mucosal melanoma of the head and neck is an infrequent disease, with a high mortality rate. Its poor prognosis can be explained by the complexity of the anatomy on these areas, its silent growth and their high capability for metastasis. The lack of knowledge, treatment protocols and series of clinical cases make the approach of patients controversial and subject to diverse therapeutic approaches. Therefore, despite previous research, it has not been possible to increase the survival rate for these patients.

CLINICAL CASE: An 89-year-old male patient with a one-year evolution nasal tumor causing nasal obstruction, purulent rhinorrhea, hyposmia, epistaxis and epiphora. A histopathological report of primary melanoma of the nasal mucosa was documented. Due to its statistics and in conjunction with the department of radio-oncology and medical oncology, surgical treatment was performed.

CONCLUSIONS: Nasal mucosal melanoma usually has a worse prognosis than those emerging from the cutaneous sites and most patients develop recurrent and disseminated disease.

KEYWORDS: Mucosal melanoma; Nasal cavity tumor; Nasal mucosa.

¹ Otorrinolaringólogo y cirujano de cabeza y cuello, médico adscrito.

² Médico cirujano, residente de cuarto año de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello.

³ Médico cirujano, residente de primer año de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello.

Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, Hospital Central Militar de México, SEDENA, Ciudad de México.

Recibido: 28 de mayo 2020

Aceptado: 28 de septiembre 2020

Correspondencia

Jorge Alberto Romo Magdaleno
magdalenomd.jar@gmail.com

Este artículo debe citarse como

Romo-Magdaleno JA, Busto-Ruano JP, Reyes-Ortega LM. Melanoma de la mucosa nasal. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 191-198.

ANTECEDENTES

El melanoma es un padecimiento proveniente de los melanocitos de las mucosas. La función del melanocito en las mucosas no es plenamente entendida, pero se ha reportado que intervienen mecanismos inmunológicos y antibacterianos importantes como presentadores de antígenos, fagocitosis y liberadores de citocinas.¹ Excepcionalmente puede surgir del epitelio de la mucosa que recubre las vías respiratorias. El melanoma mucoso nasal es una enfermedad de baja prevalencia, siendo el sitio afectado con más frecuencia del melanoma primario; sin embargo, corresponde a menos de 1% de todos los melanomas y menos de 5% de todas las neoplasias del tracto nasosinusal.² Tiene peor pronóstico que los que surgen de los sitios cutáneos.¹ El crecimiento en sitios anatómicos no visibles, las limitaciones diagnósticas, su biología única y el mal pronóstico hacen que nuestra comprensión y conocimiento sobre este tipo de cáncer, así como su manejo óptimo permanezcan limitados. En este trabajo se comunica un caso clínico, la ruta diagnóstica y terapéutica de un paciente con melanoma de la mucosa nasal, así como una revisión de la bibliografía reciente.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 89 años de edad, sin antecedentes neoplásicos familiares, con hipertensión arterial sistémica controlada. Fue referido a nuestro servicio por iniciar un año previo a su valoración con obstrucción nasal unilateral, izquierda y progresiva acompañada de rinorrea purulenta, epistaxis intermitente y de alivio espontáneo e hiposmia ipsilateral. Asimismo, refirió epífora moderada en el ojo izquierdo. En la exploración física se observó una tumoración violácea en la fosa nasal izquierda con obstrucción total de la misma, de consistencia blanda, no dolorosa, de aproximadamente 4 cm acompañada de rinorrea purulenta izquierda

(Figura 1). La tomografía simple y contrastada de nariz y senos paranasales en cortes axiales (Figura 2) y coronales (Figura 3) mostró una lesión ocupativa del seno maxilar izquierdo con extensión al pasaje nasal ipsilateral y erosión ósea. Se decidió complementar abordaje con resonancia magnética simple y contrastada con hallazgo de lesión intranasal izquierda infiltrante con epicentro en el meato medio, sin evidencia de invasión orbitaria ni de invasión en la fosa infratemporal (Figura 4). Al descartar lesión vascular, se decidió realizar una biopsia incisional en consultorio bajo anestesia local con reporte histopatológico de melanoma mucoso con patrón epiteliode, extensamente ulcerado y con focos de necrosis. Se estableció el diagnóstico de melanoma mucoso de la cavidad nasal con extensión al tabique, el seno maxilar izquierdo y las celdillas etmoidales T4aN0M0, etapa clínica IVa (según la clasificación de TNM de la AJCC) y estadio I (según la clasificación de Ballantyne). Debido a la etapa clínica se realizó resección del tumor nasal, con técnica de Weber-Ferguson,

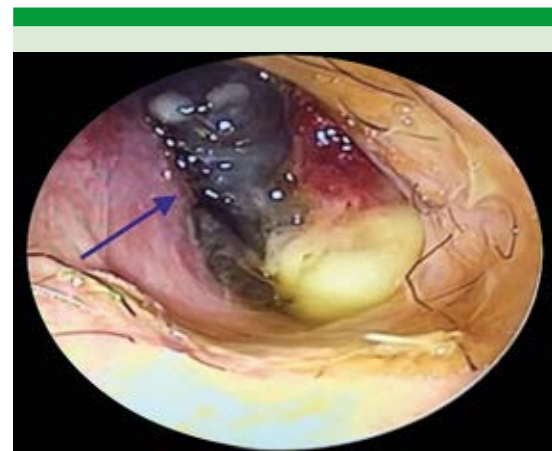


Figura 1. Endoscopia nasal anterior de la cavidad nasal izquierda que muestra ocupación por una tumoración asimétrica, de bordes irregulares, de coloración violácea, de aproximadamente 4 cm y rinorrea purulenta. Desviación septal a la derecha.



Figura 2. Tomografía computada en corte axial preoperatoria con contraste. Se observa imagen heterogénea en el tercio medio de la cara que afecta la fosa nasal izquierda, con erosión de la pared medial y antro maxilar izquierdo, lámina perpendicular del etmoides y vómer, con desviación septal hacia la derecha.

realizando rinotomía lateral, maxilectomía medial, septectomía y etmoidectomía (**Figura 5**). El estudio transoperatorio se reportó con bordes negativos. El caso se presentó a sesión conjunta con el equipo de Radio-oncología en donde se indicó tratamiento coadyuvante con radioterapia; se indicó una dosis total de 50 Gy. En la valoración de seguimiento, cuatro años después, el paciente refirió alivio de los síntomas, con adecuada cicatrización y sin datos clínicos de recidiva tumoral (**Figura 6**).

DISCUSIÓN

El melanoma mucoso corresponde a 1% de todos los melanomas. Se manifiesta principalmente en la cabeza y el cuello en 55% de los casos, seguidos de la afectación anorrectal y vulvovaginal.³ En los melanomas de cabeza y cuello, 10% son mucosos con el siguiente orden de frecuencia:



Figura 3. Tomografía computada en corte coronal preoperatoria. Se observa imagen con realce heterogéneo en el tercio medio de la cara que afecta la fosa nasal izquierda, sobrepasa la línea media con ocupación del meato medio e inferior y desviación del tabique hacia la derecha con erosión de la lámina perpendicular del etmoides.

cavidad nasal (55%), cavidad oral (25%) y senos paranasales (15%). Los melanomas de esófago, faringe y laringe son mucho menos frecuentes.^{4,5}

La frecuencia aumenta con la edad, la edad media de diagnóstico es de 70 años, a excepción del melanoma de orofaringe que afecta a pacientes más jóvenes.^{6,7} Únicamente se ha sugerido como factor de riesgo de melanomas mucosos nasosinusales la exposición ocupacional al formaldehído.⁸ Es más frecuente en mujeres que en hombres.⁶ Al igual que los melanomas

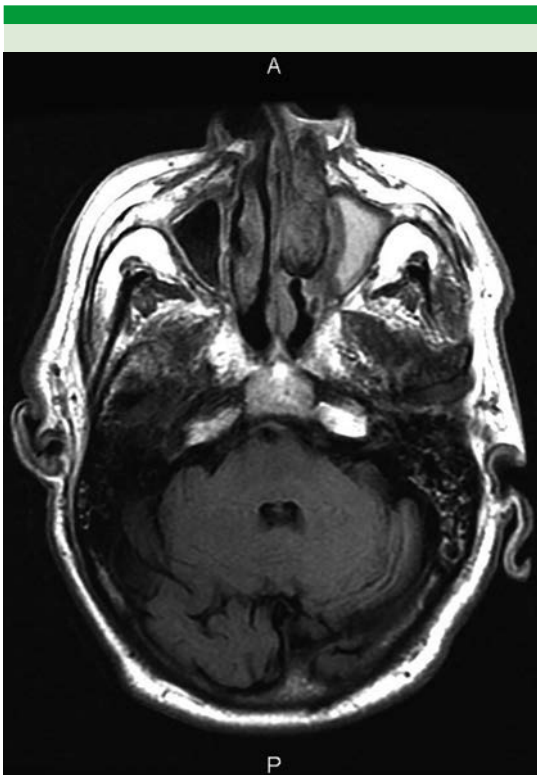


Figura 4. Resonancia magnética con imagen heterogénea hipointensa que afecta la fosa nasal izquierda, el antro maxilar izquierdo y las celdillas etmoidales, aparentemente sin reforzamiento del tumor al medio de contraste.

cutáneos, el melanoma mucoso es más común en caucásicos que en raza negra; sin embargo, de todos los melanomas de los pacientes de raza negra 9% son mucosos, mientras que en caucásicos únicamente 2%.⁹ Alrededor de 20% de los melanomas mucosos son multifocales, en comparación con 5% de los cutáneos.¹⁰ Asimismo, 40% son amelanóticos.¹¹ La supervivencia a 5 años es de 25% a pesar del tratamiento óptimo en comparación con el melanoma cutáneo en el que la supervivencia es de 80%.³ El caso comunicado se trata de un melanoma de mucosa nasal en un paciente masculino de edad avanzada y caucásico, lo que concuerda con lo descrito en la bibliografía.



Figura 5. Imagen transoperatoria que muestra exposición de la cavidad nasal a través de incisión de Weber-Ferguson.

Puede manifestarse de diversas formas clínicas según el sitio de crecimiento. El paciente puede cursar asintomático o con síntomas de obstrucción nasal, que fue el primer síntoma de nuestro paciente, así como dolor, sinusitis, anosmia, epífora o epistaxis intermitente por la masa tumoral.^{12,13} Suelen diagnosticarse en fases tardías y, por tanto, tienen peor pronóstico. Los melanomas de cavidad oral y orofaringe generalmente se diagnostican de forma incidental durante la exploración física de rutina.¹⁴ El comportamiento clínico del melanoma es impredecible, a menudo existe infiltración al tejido óseo en el momento del diagnóstico, así como metástasis.¹⁵

El diagnóstico se establece principalmente mediante dermatoscopia con los mismos identificadores de malignidad que en los melanomas cutáneos (**Cuadro 1**).¹⁶ En caso de encontrarse en sitios anatómicos de difícil acceso se utiliza visión endoscópica. El diagnóstico definitivo se establece mediante biopsia de la lesión, como se le realizó al paciente, por el sitio anatómico que daba origen al tumor.¹⁶



Figura 6. Imagen facial cuatro años después de la intervención quirúrgica.

En el diagnóstico diferencial es importante considerar la melanosis; es más frecuente en personas de raza negra y generalmente es simétrico, para diferenciarlo debe realizarse una biopsia.¹⁷ Otros diagnósticos diferenciales de importancia incluyen: linfoma, carcinoma indiferenciado, el fibrosarcoma, los tumores malignos de la vaina del nervio periférico pigmentados, el neuroblastoma olfatorio y el carcinoma sinonasal.^{15,18}

Debe realizarse tomografía axial computada y resonancia magnética para valorar la invasión a estructuras adyacentes y metástasis ganglionar a distancia. La tomografía por emisión de positrones (PET-CT) también se utiliza para valorar metástasis a distancia.³

Cursa con un crecimiento lentiginoso, debido a esto y a la complejidad de la anatomía de la mucosa de la cabeza y el cuello, su resección completa con márgenes negativos es limitada; sin embargo, como en el caso comunicado, los márgenes negativos pueden lograrse con un adecuado abordaje y según la diseminación local. La mayoría de los pacientes generan metástasis a pesar de su resección completa.¹⁹

Cuadro 1. Criterios dermatoscópicos de malignidad

Criterios dermatoscópicos	Definición
Patrón multicomponente	Combinación de tres o más estructuras dermatoscópicas distintivas (retículo pigmentado, glóbulos, proyecciones, macnas)
Patrón inespecífico	Lesión pigmentada sin criterios suficientes para catalogar su patrón como reticulado, globular, homogéneo o en estallido de estrella por definición
Retículo pigmentado atípico	Retículo pigmentado negro, marrón o gris, con orificios irregulares y líneas gruesas
Puntos/glóbulos irregulares	Estructuras redondas u ovales de diversos tamaños y distribución irregular, coloración marrón o negra
Líneas irregulares (pseudópodos y proyecciones radiales)	Líneas y proyecciones irregulares de aspecto bulboso o digitiforme, de color marrón o negro, situadas en el borde de la lesión, derivan de estructuras reticuladas o del cuerpo del tumor
Velo azul-blanquecino	Área irregular, desestructurada, de pigmentación azul, confluyente con un manto o velo blanquecino de aspecto de vidrio esmerilado. La pigmentación no abarca la totalidad de la lesión y en general corresponde a un área clínicamente elevada de la lesión
Estructura de regresión	Despigmentación blanquecina de aspecto pseudocicatricial, gránulos azul-grisáceo (en pimienta) o ambos. Suele corresponder, clínicamente, a un área aplanada de la región
Estructuras vasculares	Vasos sanguíneos de distribución irregular, de apariencia lineal, puntiforme o en horquilla, o eritema dentro de las estructuras de regresión

Afortunadamente en el caso de nuestro paciente se descartó metástasis a distancia por tomografía toraco-abdomino-pélvica simple y contrastada.

Existe una forma simplificada (estratificación de Ballantyne) de clasificación con tres estadios:²⁰

- Estadio I: enfermedad clínicamente localizada.
- Estadio II: metástasis ganglionar.
- Estadio III: metástasis a distancia.

En las lesiones de cabeza y cuello se utiliza la estratificación de acuerdo con el TNM de la AJCC (**Cuadro 2**), que inicia en estadio III como la forma más limitada de la enfermedad, esto demuestra el pronóstico adverso de este padecimiento.^{14,18}

Las opciones de tratamiento dependen de varios factores, como la diferenciación de la lesión y el grado de extensión, el tratamiento quirúrgico es de primera elección, con la resección con amplios márgenes quirúrgicos.^{2,15} La cirugía se reserva para los estadios III y IVA, en caso de que la lesión pueda ser reseca con márgenes negativos o si se requiere control local de la enfermedad. El procedimiento puede realizarse por vía endoscópica o abierta. Se ha demostrado la misma tasa de resección con márgenes negativos, así como la misma supervivencia y morbilidad.²¹ En este caso se efectuó una extirpación en bloque amplio de la lesión a través de una técnica de Weber-Ferguson.

La existencia de nódulos ganglionares varía por localización; en los senos paranasales es de 10% y en la cavidad oral de 25%, por lo que algunos

Cuadro 2. Clasificación TNM de la AJCC

Tumor primario		Descripción	
T3		Tumor limitado a la mucosa y a los tejidos blandos subyacentes, sin importar la dimensión	
T4		Moderadamente avanzado o muy avanzado	
T4a		Moderadamente avanzado; tumor que invade tejido blando profundo, cartílago, hueso o piel	
T4b		Muy avanzado; tumor que invade cerebro, duramadre de cráneo, pares craneales bajos (IX, X, XI, XII), espacio mastoide, arteria carótida, espacio prevertebral o estructuras mediastinales	
Nódulos linfáticos regionales		Descripción	
Nx		No pueden documentarse nódulos linfáticos	
N0		Sin nódulos linfáticos metastásicos regionales	
N1		Nódulos linfáticos metastásicos regionales presentes	
Metástasis a distancia		Descripción	
M0		Sin metástasis a distancia	
M1		Metástasis distante presente	
Estadio	T	N	M
III	T3	N0	M0
IVA	T4a	N0	M0
	T3, T4a	N1	M0
IVB	T4b	Cualquier N	M0
IVC	Cualquier T	Cualquier N	M1



autores recomiendan la disección de cuello electiva. A pesar de realizar disección de cuello, la supervivencia a cinco años continúa siendo la misma, por lo que debe tomarse en cuenta solo para control local de la enfermedad y de forma paliativa o sintomática.²²

El papel de la radioterapia coadyuvante permanece controvertido. La recurrencia local ocurre en 29 a 79% de los casos a pesar de tratamiento quirúrgico agresivo.^{5,7,22} Es más común su prescripción en lesiones sinonasales por la dificultad inherente de obtener una adecuada escisión en estos tumores.¹⁴ Se ha reportado que puede mejorar el control local en pacientes con márgenes quirúrgicos positivos, pero no está comprobado el efecto en la supervivencia.^{7,22} Asimismo, es muy poco probable que haya suficientes pacientes para distribuir al azar, estratificar y examinar prospectivamente a fin de tener una evaluación concluyente del papel de la radioterapia posquirúrgica.^{14,21} Si todos estos factores se combinan con el hecho de que los esquemas de dosis alta por fracción prescritos actualmente se asocian con efectos secundarios mínimos, parece haber poca indicación de retener el tratamiento con radioterapia coadyuvante cuando los márgenes quirúrgicos son casi siempre subóptimos en virtud de la anatomía del región.¹⁴ La radioterapia primaria se considera en pacientes con lesiones irresecables o cuando una resección de márgenes no es posible.^{14,22} En nuestro paciente, a pesar de tener márgenes quirúrgicos negativos, se decidió la administración de radioterapia coadyuvante por el alto índice de recurrencia que tienen estos pacientes y tratar de mejorar el pronóstico.

Existen pocos estudios de la efectividad de la terapia sistémica, se sabe que la inmunoterapia coadyuvante con interferón alfa o ipilimumab es efectiva en los melanomas cutáneos; sin embargo, no existen pruebas en melanomas mucosos.²³

En todos los pacientes deben analizarse mutaciones en V600 en el gen BRAF. En caso de no tener mutaciones en el gen BRAF (10% de los melanomas mucosos lo tienen) debe buscarse la mutación en el gen KIT (25% de los melanomas mucosos).^{23,24} Esto con el fin de ofrecer una terapia dirigida como mesilato de imatinib, una molécula inhibidora de KIT, aunque aún se encuentra en fase de estudio. El tratamiento con vemurafenib o dabrafenib, inhibidores de BRAF, asociado con cobimetinib o trametinib, inhibidores de MEK, deberá considerarse en pacientes con enfermedad avanzada y mutaciones en el gen BRAF.^{23,24}

La administración de otros agentes, como anti-CTLA4 (ipilimumab) o anti-PD-1 (nivolumab y pembrolizumab) han demostrado eficacia en la enfermedad avanzada del melanoma cutáneo; sin embargo, aún no se cuenta con los datos suficientes para valorar su papel en el melanoma mucoso.^{25,26} Existen estudios que documentan que la respuesta del melanoma mucoso al cisplatino combinado con interferón alfa es similar a la del melanoma cutáneo.^{26,27}

CONCLUSIONES

El melanoma mucoso nasal es una neoplasia de baja frecuencia, por lo que no existe un abordaje estandarizado. Suele tener peor pronóstico que los que surgen de los sitios cutáneos y la mayoría de los pacientes desarrollan enfermedad recurrente y diseminada. El diagnóstico temprano es de vital importancia ante la relevancia pronóstica. Deberá tomarse en cuenta la localización y la existencia de enfermedad metastásica para su tratamiento. Se comunicó un caso de melanoma de la mucosa nasosinusal en el que el tratamiento quirúrgico radical y la radioterapia coadyuvante lograron la adecuada eliminación del tumor, sin que hubiera recidiva local tumoral y otorgando al paciente una buena calidad de vida.

REFERENCIAS

1. Ballester R, Unamuno B, Navarro M, Botella R. Actualización en melanoma mucoso. *Actas Dermosifiliográficas* 2015; 106 (2): 96-103. DOI: 10.1016/j.ad.2014.04.012
2. Reynoso-Othon J, García-Iracheta F. Melanoma maligno de la mucosa nasal. *An Orl Mex* 2011; 56 (3): 149-152.
3. Change AE, Karnell LH, Menck HR. The National Cancer Data Base report on cutaneous and noncutaneous melanoma: a summary of 84,836 cases from the past decade. The American College of Surgeons Commission on Cancer and the American Cancer Society. *Cancer* 1998; 83: 1664. doi: 10.1002/(sici)1097-0142(19981015)83:8<1664::aid-cncr23>3.0.co;2-g
4. Manolidis S, Donald PJ. Malignant mucosal melanoma of the head and neck: review of the literature and report of 14 patients. *Cancer* 1997; 80 (8): 1373-86. doi: 10.1002/(sici)1097-0142(19971015)80:8<1373::aid-cncr3>3.0.co;2-g
5. Bachar G, Loh KS, O'Sullivan B, et al. Mucosal melanoma of the head and neck: experience of the Princess Margaret Hospital. *Head Neck* 2008; 30 (10): 1325-31. doi: 10.1002/hed.20878
6. Rapini RP, Golitz LE, Greer RO Jr, et al. Primary malignant melanoma of the oral cavity. A review of 177 cases. *Cancer* 1985; 55 (7): 1543-51. doi: 10.1002/1097-0142(19850401)55:7<1543::aid-cncr2820550722>3.0.co;2-f
7. Meleti M, Leemans CR, de Bree R, et al. Head and neck mucosal melanoma: experience with 42 patients, with emphasis on the role of postoperative radiotherapy. *Head Neck* 2008; 30 (12): 1543-51. doi: 10.1002/hed.20901
8. Holmstrom M, Lund VJ. Malignant melanomas of the nasal cavity after occupational exposure to formaldehyde. *Br J Ind Med* 1991; 48 (1): 9-11. doi: 10.1136/oem.48.1.9
9. Cress RD, Holly EA. Incidence of cutaneous melanoma among non Hispanic whites, Hispanics, Asians, and blacks: an analysis of California cancer registry data, 1988-93. *Cancer Causes Control* 1997; 8 (2): 246-52. doi: 10.1023/a:1018432632528
10. Lotem M, Anteby S, Peretz T, et al. Mucosal melanoma of the female genital tract is a multifocal disorder. *Gynecol Oncol* 2003; 88 (1): 45-50. <https://doi.org/10.1006/gyno.2002.6848>
11. Carvajal RD, Spencer SA, Lydiatt W. Mucosal melanoma: a clinically and biologically unique disease entity. *J Natl Compr Canc Netw* 2012; 10 (3): 345-56. doi: 10.6004/jnccn.2012.0034
12. Stern SJ, Guillaumondegui OM. Mucosal melanoma of the head and neck. *Head Neck*. 1991; 13 (1): 22-27. <https://doi.org/10.1002/hed.2880130104>
13. Moreno MA, Roberts DB, Kupferman ME, et al. Mucosal melanoma of the nose and paranasal sinuses, a contemporary experience from the M. D. Anderson Cancer Center. *Cancer* 2010; 116: 2215. doi: 10.1002/cncr.24976
14. Patel SG, Prasad ML, Escrib M, et al. Primary mucosal malignant melanoma of the head and neck. *Head Neck* 2002; 24 (3): 247-257. doi: 10.1002/hed.10019
15. Moctezuma-Bravo G, Díaz de León-Medina R, Rodríguez-Quilantán F, Salgado-Nevárez M, Moctezuma-Dávila M. Melanoma nasomaxilar: revisión de la literatura y reporte de un caso. *Gac Mex Oncol* 2016; 15 (3): 181-186. DOI: 10.1016/j.gamo.2016.04.001
16. Roldán-Marín R, Carlos-Ortega B. Criterios dermatoscópicos para el diagnóstico de lesión melanocítica y melanoma cutáneo. *Dermatología CMQ* 2014; 12 (2): 142-148.
17. Sebaratnam DF, Venugopal SS, Frew JW, et al. Diffuse melanosis cutis: a systematic review of the literature. *J Am Acad Dermatol* 2013; 68 (3): 482-488. doi: 10.1016/j.jaad.2012.08.018
18. Thompson LD, Wieneke JA, Miettinen M. Sinonasal tract and nasopharyngeal melanomas: a clinicopathologic study of 115 cases with a proposed staging system. *Am J Surg Pathol* 2003; 27 (5): 594-611. doi: 10.1097/00000478-200305000-00004
19. Ganly I, Patel SG, Singh B, et al. Craniofacial resection for malignant melanoma of the skull base: report of an international collaborative study. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2006; 132 (1): 73-78. doi:10.1001/archotol.132.1.73
20. Ballantyne AJ. Malignant melanoma of the skin of the head and neck. An analysis of 405 cases. *Am J Surg* 1970; 120 (4): 425-431. [https://doi.org/10.1016/S0002-9610\(70\)80001-0](https://doi.org/10.1016/S0002-9610(70)80001-0)
21. Swegal W, Koyfman Sh, Scharpf J, Sindwani R, Greskovich J, et al. Endoscopic and open surgical approaches to locally advanced sinonasal melanoma: Comparing the therapeutic benefits. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2014; 140 (9): 840-845. doi: 10.1001/jamaoto.2014.1321
22. Krenqli M, Masini L, Kaanders JH, et al. Radiotherapy in the treatment of mucosal melanoma of the upper aerodigestive tract: analysis of 74 cases. A Rare Cancer Network study. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 2006; 65 (3): 751-759. doi: 10.1016/j.ijrobp.2006.01.016
23. Carvajal RD, Antonescu CR, Wolchok JD, et al. KIT as therapeutic target in metastatic melanoma. *JAMA*. 2011; 305 (22): 2327-2334. doi: 10.1001/jama.2011.746
24. Curtin JA, Busam K, Pinkel D, Bastian BC. Somatic activation of KIT in distinct subtypes of melanoma. *J Clin Oncol* 2006; 24 (26): 4340-6. doi: 10.1200/JCO.2006.06.2984
25. Shoushtari AN, Munhoz RR, Kuk D, et al. The efficacy of anti-PD-1 agents in acral and mucosal melanoma. *Cancer* 2016; 122 (21): 3354-3362. doi: 10.1002/cncr.30259
26. Kim KB, Sanguino AM, Hodges C, et al. Biochemotherapy in patients with metastatic anorectal mucosal melanoma. *Cancer* 2004; 100: 1478-1483. doi: 10.1002/cncr.20113
27. Bartell HL, Bedikian AY, Papadopoulos NE, et al. Biochemotherapy in patients with advanced head and neck mucosal melanoma. *Head Neck* 2008; 30: 1592-8. doi: 10.1002/hed.20910



Meningioma de hueso temporal como causa de otitis media serosa crónica unilateral

Temporal bone meningioma as a cause of unilateral chronic serous otitis media.

Eugenia López-Simón, Patricia Corriols-Noval, Nathalia Castillo-Ledesma, Minerva Rodríguez-Martín

Resumen

ANTECEDENTES: Los meningiomas extracraneales son tumores benignos muy poco frecuentes y la afectación del hueso temporal es extremadamente rara. La otitis media serosa es una afección muy común en la práctica clínica diaria, generalmente idiopática, pero puede ser consecuencia de enfermedades primarias.

CASO CLÍNICO: Paciente femenina de 41 años con diagnóstico de meningioma con extensión infratemporal cuya forma de manifestación clínica fue una otitis media serosa unilateral de ocho años de evolución. El diagnóstico se basa en pruebas de imagen, como la tomografía computada y la resonancia magnética, y la cirugía es el tratamiento primario de elección.

CONCLUSIONES: Este caso clínico pone de manifiesto la importancia de no subestimar esta enfermedad y poder prevenir así el retraso en el diagnóstico y tratamiento de otras más graves.

PALABRAS CLAVE: Otitis media serosa; hueso temporal; meningioma.

Abstract

BACKGROUND: Extracranial meningiomas are infrequent benign tumors and affectation of the temporal bone is extremely rare. Serous otitis media is a common condition in the current clinical practices, generally idiopathic, but it may be consequence of some primary diseases.

CLINICAL CASE: A 41-year-old female patient with a diagnosis of meningioma with infratemporal extension whose clinical presentation was as a unilateral serous otitis media for eight years. Diagnosis relies on imaging evaluation with computed tomography and magnetic resonance, while surgery is the primary treatment of choice.

CONCLUSIONS: This clinical case emphasizes the importance of not to underestimate this disease and be able to prevent any delay in diagnosis or treatment of other more serious.

KEYWORDS: Serous otitis media; Temporal bone; Meningioma.

Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, España.

Recibido: 6 de julio 2020

Aceptado: 13 de octubre 2020

Correspondencia

Eugenia López Simón
eugenialopez@usal.es

Este artículo debe citarse como

López-Simón E, Corriols-Noval P, Castillo-Ledesma N, Rodríguez-Martín M. Meningioma de hueso temporal como causa de otitis media serosa crónica unilateral. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 199-204.

ANTECEDENTES

Los meningiomas son los segundos tumores intracraneales más frecuentes tras los gliomas, representan 13 a 26%. Sin embargo, los meningiomas del hueso temporal son muy raros y representan solo 2%. En la mayoría de los casos, son parte de un meningioma intracraneal que se expande hacia el hueso temporal. Su forma de manifestación es muy variable, puede ser como otitis media crónica y más específicamente como otitis media serosa.

Una vez descartado el tumor nasofaríngeo y en los casos de otitis media serosa unilateral recurrente y resistente al tratamiento, deben solicitarse pruebas de imagen complementarias, como la tomografía computada y la resonancia magnética. El conjunto de ambas puede confirmar con seguridad el diagnóstico y extensión de los meningiomas temporales.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 41 años sin antecedentes de interés que acudió remitida por su médico de atención primaria a nuestro servicio en 2009, por haber manifestado un primer cuadro vertiginoso de minutos de duración, asociado con cortejo vegetativo, pero sin síntomas auditivos ni pérdida de conciencia. En el servicio de urgencias se le extrajo un tapón de cera y fue tratada con sulpirida con alivio completo y sin nueva recurrencia.

La exploración física y las pruebas complementarias realizadas fueron rigurosamente normales, a excepción de la prueba de Unterberger-Fukuda que mostró un ángulo de desplazamiento de 90° hacia la derecha.

En la primera revisión, se encontraba totalmente asintomática y la videonistagmografía realizada no mostró alteración alguna. Seis meses después

fue diagnosticada con otitis media serosa del oído derecho.

Durante ocho años, ha seguido acudiendo a revisiones periódicas con persistencia del cuadro de otitis seromucosa sin otros síntomas acompañantes. La otoscopia evidenciaba una membrana timpánica íntegra ambarina. Se realizaron varias miringotomías en las que se aspiraba contenido mucoso acuoso, pero tras la ausencia de mejoría, se decidió la colocación de un drenaje transtimpánico. La paciente continuó realizando de forma constante pautas mensuales de corticoides nasales e intramusculares y los drenajes se fueron reemplazando.

Las pruebas complementarias, como la audiometría, mostraban hipoacusia de transmisión leve derecha y un timpanograma tipo B que se normalizaban cuando se desobstruía el drenaje. Se realizó fibroscopia en cada visita y siempre excluyó enfermedad. Además, se tomaron varios cultivos del líquido aspirado que mostraban flora mixta bacteriana.

Sin embargo, en 2018 se solicitó, debido a la mala evolución y recurrencia del cuadro, una tomografía computada de peñascos, mastoides y conducto auditivo interno sin contraste. Entre los hallazgos destacó la ocupación total de la cavidad timpánica y de las celdillas mastoideas. El tegmen y espolón supratimpánico estaban íntegros, pero adelgazados y no se apreció afectación de la cadena osicular (**Figuras 1 y 2**).

Se solicitó una resonancia magnética complementaria para descartar enfermedad en la zona dehiscente del tegmen tympani a nivel del ático anterior. El resultado fue la aparición de una gran masa en la fosa craneal media derecha con extensión extracraneal, de morfología lobulada con bordes bien definidos e intenso realce tras la administración de contraste. En la fosa craneal

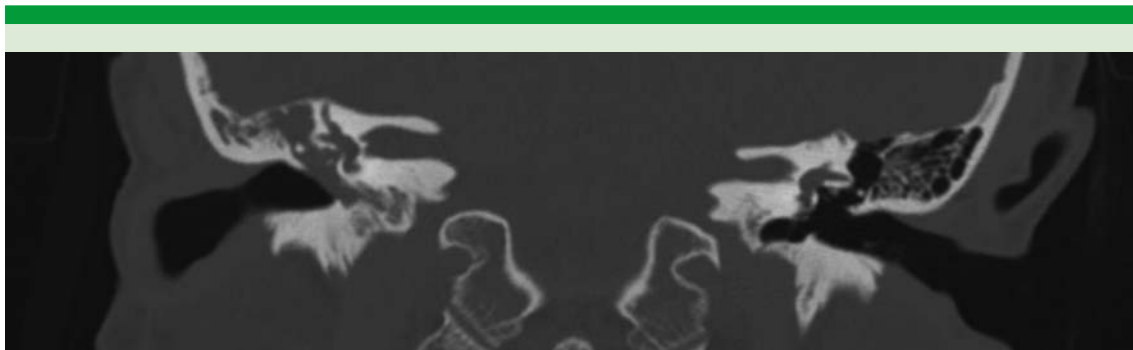


Figura 1. TAC sin contraste en corte coronal. Se visualiza integridad del tegmen tympani y espolón supratimpánico, así como de la cadena osicular.



Figura 2. TAC sin contraste en corte axial. Ocupación total de la cavidad timpánica y celdillas mastoideas derechas.

posterior ocupaba la cisterna peripontina condicionando distorsión del tronco del encéfalo.

Aparentemente no había extensión hacia el conducto auditivo interno derecho. Se extendió ocupando el cavum de Meckel y hacia la fosa

temporal comprimiendo el parénquima cerebral con importante edema en la sustancia blanca. Colapsaba parcialmente el ventrículo lateral derecho y III ventrículo desplazando la línea media. Distorsionaba ligeramente la cintilla óptica posterior, desplazaba la arteria cerebral media derecha y parecía englobar la carótida interna (**Figuras 3 y 4**).

Las imágenes fueron valoradas por varios expertos que acordaron como diagnóstico meningioma en fosa media con extensión infratemporal.

La paciente comenzó con cefalea, diplopía oblicua con la mirada inferior y ciertos olvidos transitorios por lo que, en conjunto con el servicio de Neurocirugía y Maxilofacial, se decidió intervenir quirúrgicamente previa embolización percutánea debido a su gran tamaño. Se realizó un abordaje transmandibular preauricular tipo Hinz, más subtemporal transcigomático con resección subtotal del tumor sin incidencias destacables. Se remitió una muestra para estudio histológico intraoperatorio que fue informada como meningioma.

En el posoperatorio inmediato la paciente permaneció hemodinámicamente estable y

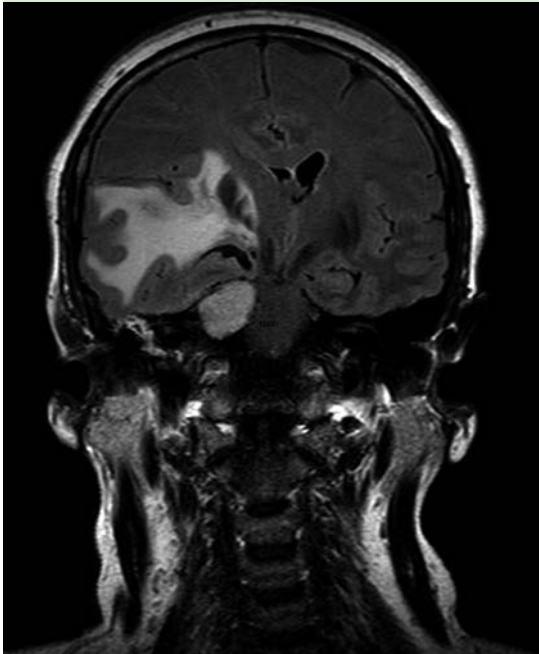


Figura 3. Resonancia magnética en corte coronal. Gran masa lobulada en la fosa craneal media derecha con extensión extracraneal e intenso realce tras la administración de contraste.

con evolución favorable. Orientada en las tres esferas y como únicas secuelas tuvo parálisis facial periférica derecha grado VI según la escala House-Brackmann y parestesias en territorio de V3 del mismo lado sin afectación de pares craneales bajos. No refirió diplopía y tenía los movimientos oculares aparentemente conservados. La herida quirúrgica curó sin incidencias y la paciente fue dada de alta tras 10 días de ingreso.

En la tomografía computada de control en comparación con el estudio prequirúrgico se observó extirpación de prácticamente toda la lesión exceptuando un pequeño remanente tumoral paraselar derecho de aproximadamente 1.5 x 1 cm (**Figura 5**). La evolución posterior fue favorable con alivio de los síntomas y paulatina curación de la parálisis facial.



Figura 4. Resonancia magnética en corte axial. El tumor se extiende ocupando el cavum de Meckel y la fosa temporal comprimiendo el parénquima cerebral.

DISCUSIÓN

Los meningiomas son tumores intracraneales benignos de crecimiento lento. Suponen 13-26% de todas las neoplasias intracraneales primarias y son los segundos más frecuentes en el ángulo pontocerebeloso. Se diferencian en dos tipos: globulares o en placa.^{1,2} Sin embargo, la afectación del hueso temporal es extremadamente infrecuente y puede permanecer asintomática durante muchos años. Ayache y su grupo² describieron que el tiempo entre la aparición de los síntomas y el diagnóstico fue de uno a diez años.

Su extensión extracraneal hacia la mastoides o la cavidad del oído medio por el tegmen tympani o la fosa posterior puede manifestarse en forma de otitis media serosa o dar lugar a complicaciones



Figura 5. TAC de control posquirúrgico. Pequeño remanente tumoral paraselar derecho de 1.5 x 1 cm.

auditivas por destrucción con alto riesgo de infra-diagnóstico.² Thompson y su grupo³ describieron una serie de 36 pacientes con tumores del hueso temporal donde reportaron que los tumores del oído medio eran los más frecuentes ($n = 25$), seguidos por los del canal auditivo ($n = 4$) y únicamente dos casos en el hueso temporal ($n = 2$). Se clasifican en primarios y secundarios según su origen esté dentro o fuera del hueso temporal. Desde el punto de vista histopatológico, la mayor parte son de tipo meningotelial, fibroso, transicional y angioblástico.³

La otitis media crónica u otitis media serosa es el síntoma más comúnmente asociado. Esto seguramente se debe a la obstrucción de la trompa de Eustaquio y consecuente extensión del tumor en la cavidad del oído medio.^{2,4} En algunos casos, un tipo de meningioma secretor o una fístula de líquido cefalorraquídeo al espacio timpánico

es el responsable de la acumulación serosa. Además, la diseminación por el canal auditivo interno puede ocasionar hipoacusia neurosensorial, vértigo, acúfenos o parálisis facial.⁴

Es conveniente realizar una prueba de imagen, como la tomografía computada en los pacientes con resistencia crónica al tratamiento de otitis media serosa unilateral atípica tras haber descartado el tumor nasofaríngeo.^{3,4} La tomografía computada en sí misma no puede detectar este tipo de tumores, pero sí aporta signos radiológicos altamente sugerentes.

La resonancia magnética con gadolinio es, por tanto, la técnica de elección para confirmar el diagnóstico de meningioma intracraneal.^{3,5} El realce con gadolinio ha demostrado ser especialmente eficaz para delimitar los meningiomas en placa.

El tratamiento debe ser personalizado según las características del paciente y la implicación de estructuras neurales y vasculares.⁴ Es de elección la resección quirúrgica amplia incluyendo la parte ósea afectada y la duramadre de alrededor. El abordaje quirúrgico depende de su localización, tamaño y grado de audición del paciente, pudiendo ser retro o translaberíntica, transótica, transcoclear o subtemporal.⁵

Las características infiltrantes de los meningiomas en placa hacen que la resección completa sea prácticamente imposible y la disección de estructuras neurales y vasculares muy difícil, como en nuestro caso.³ La lesión residual posquirúrgica puede controlarse con radioterapia coadyuvante en los casos más agresivos. La quimioterapia a base de hidroxiurea se ha sugerido como tratamiento de los tumores más resistentes.⁶

En el caso clínico expuesto consideramos que como parte del protocolo de estudio de otitis media crónica serosa unilateral debieron incluir-

se estudios de imagen al no obtener respuesta terapéutica con el tratamiento convencional. Como otorrinolaringólogos debemos alertarnos cuando fracasa la colocación de drenajes trans-timpánicos u otros tratamientos médicos.

CONCLUSIONES

Los meningiomas extracraneales, aun siendo poco frecuentes, deben sospecharse con prontitud. Deben realizarse pruebas de imagen complementarias en los casos de otitis media crónica serosa unilateral sin obstrucción nasofaríngea de años de evolución.⁶ La resonancia magnética o la biopsia a través de miringotomía es aconsejable para evitar retrasos en el diagnóstico. El tratamiento primario de elección es la cirugía,⁵ aunque la resección total no sea siempre posible como en los de mayor tamaño o con afectación vasculonerviosa, como el caso de nuestra paciente.

REFERENCIAS

1. Keereweer S, Metselaar RM, Dammers R, et al. Chronic serous otitis media as a manifestation of temporal meningioma. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec*. 2011; 73: 287-290. doi: 10.1159/000330278
2. Ayache D, Trabalzini F, Bordure P, Gratacap B, Darrouzet V, Schmerber S, et al. Serous otitis media revealing temporal en plaque meningioma. *Otol Neurotol* 2006; 27: 992-8. doi: 10.1097/01.mao.0000227904.55107.ec
3. Thompson LD, Bouffard JP, Sandberg GD, Mena H. Primary ear and temporal bone meningiomas: a clinicopathologic study of 36 cases with a review of the literature. *Mod Pathol* 2003; 16 (3): 236-45. doi: 10.1097/01.MP.0000056631.15739.1B
4. Nicolay S, De Foer B, Bernaerts A, Van Dinther J, Parizel PM. A case of a temporal bone meningioma presenting as a serous otitis media. *Acta Radiol Short Rep* 2014; 3. doi: 10.1177/2047981614555048
5. Ricciardiello F, Fattore L, Liguori M, et al. Temporal bone meningioma involving the middle ear: A case report. *J Oncol* 2015; 10: 2294-52. <https://doi.org/10.3892/ol.2015.3516>
6. Norden AD, Drappatz J, Wen PY. Advances in meningioma therapy. *Curr Neurol Neurosci Rep* 2009; 9 (3): 231-40. doi: 10.1007/s11910-009-0034-5



La importancia de la creación de un modelo de hueso temporal en impresora 3D para el laboratorio de fresado. Revisión de casos recreados

The importance of creating a temporal bone model in a 3D printer for the milling laboratory. Review of recreated cases.

Ramón Horcasitas-Pous,¹ Andrea González²

Resumen

ANTECEDENTES: La disección del hueso temporal es fundamental en el adiestramiento otológico, los huesos temporales de cadáver son cada vez más complicados de obtener en México debido a las regulaciones de la Secretaría de Salud.

CASOS CLÍNICOS: Se describe el uso de la impresora 3D para la producción de un modelo de resina epóxica obtenido de un estudio de tomografía computada de hueso temporal de dos pacientes operados con anterioridad en el programa de implante coclear del Hospital Infantil del Estado de Chihuahua. Se imprimieron dos modelos y se evaluaron, todos los modelos utilizaron múltiples colores (blanco para hueso, amarillo para el nervio facial), se fresaron tres modelos como prueba de la utilidad del modelo, observando todas las referencias quirúrgicas adecuadas.

CONCLUSIONES: El presente modelo de hueso temporal impreso en una impresora 3D es útil, puede ser una opción de bajo costo para los laboratorios de hueso temporal para los residentes o bien se puede preparar un caso antes de realizar la cirugía en vivo.

PALABRAS CLAVE: Imagen 3D; hueso temporal; tomografía de oído; implante coclear.

Abstract

BACKGROUND: Temporal bone dissection is a fundamental element of otologic training. Cadaveric temporal bones do not have ready access to them on some institutions due to new health rules in Mexico.

CLINICAL CASES: We describe the use of a 3D printer for the generation of a plaster training model from a high resolution temporal bone CT of three patients already operated from the Cochlear Implant Program of the Hospital Infantil del Estado de Chihuahua. Two models were produced and were evaluated, the models utilized multiple colors (white for bone, yellow for the facial nerve), three models were drilled as a proof of concept and found to be useful as all necessary surgical landmarks are accurately.

CONCLUSIONS: Our 3D temporal bone training model is a viable, low cost training option for a temporal bone lab for residents and allow print a model before doing a surgery on the living patient.

KEYWORDS: 3D image; Temporal bone; Ear tomography; Cochlear implant.

¹ ORL, Hospital Infantil del Estado de Chihuahua, Chihuahua, México.

² Intelligi Chihuahua, Chihuahua, México.

Recibido: 7 de septiembre 2020

Aceptado: 15 de octubre 2020

Correspondencia

Andrea Gonzalez
andrea.gonzalez@intelligi.com

Este artículo debe citarse como

Horcasitas-Pous R, González A. La importancia de la creación de un modelo de hueso temporal en impresora 3D para el laboratorio de fresado. Revisión de casos recreados. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 205-211.

ANTECEDENTES

La cirugía de hueso temporal requiere una experiencia de práctica muy extensa debido a su compleja anatomía tridimensional y su relación con estructuras neurovasculares, lo que hace que sea un reto para cirujano en capacitación para poder iniciar su experiencia con pacientes verdaderos. El patrón de referencia de un laboratorio de fresado de hueso temporal ha sido el fresado de temporales provenientes de cadáveres, aunque en la actualidad, debido a modificaciones de la Ley de Salud con respecto a partes provenientes de cadáver, se ha vuelto muy complicado o casi imposible; durante el adiestramiento de residentes se ha visto que la asistencia al laboratorio de hueso de fresado aumenta la capacidad quirúrgica del mismo, aunado a la seguridad del paciente.¹

Poco a poco la impresión en 3D se ha convertido en una herramienta muy útil, los modelos más populares y útiles son los generados de sulfato de calcio, aun así, son varios los retos que deben resolverse; el modelo debe tener una rigidez adecuada, pero al mismo tiempo mantener las estructuras aéreas de las celdillas mastoideas, poder definir la cadena osicular completa, delimitar los canales semicirculares y el trayecto del nervio facial.²

En este artículo se realizó un modelo de acuerdo con el estudio de tomografía computada de oído, fresado de los mismos modelos y la comparación con los videos de los casos, dando por sentado las similitudes anatómicas de los mismos.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1

Paciente masculino de 3 años 9 meses de edad, con hipoacusia neurosensorial profunda bilateral detectada a los dos meses de edad por prueba

de tamiz auditivo del gobierno del estado, citomegalovirus negativos, conexina 26 negativo; el estudio de tomografía computada mostró una cavidad única ótica (**Figura 1**); se realizó un implante coclear derecho mediante timpanotomía posterior, con inserción completa en la cavidad con ocho electrodos funcionales (**Figura 2**).

Aplicación de la tecnología 3D

Gracias a la impresión 3D pudo hacerse una réplica del hueso temporal con las características anatómicas del padecimiento del paciente para una práctica preoperatoria. Se utilizó la tecnología PolyJet que funciona inyectando material fotopolímero en capas ultrafinas, pueden combinarse materiales de diferentes propiedades para las impresiones con acabados más realistas (**Figuras 3 y 4**).

- Primero se realizó la segmentación en el programa Materialise Mimics, se



Figura 1. Corte coronal de cavidad única con expansión laberinto.

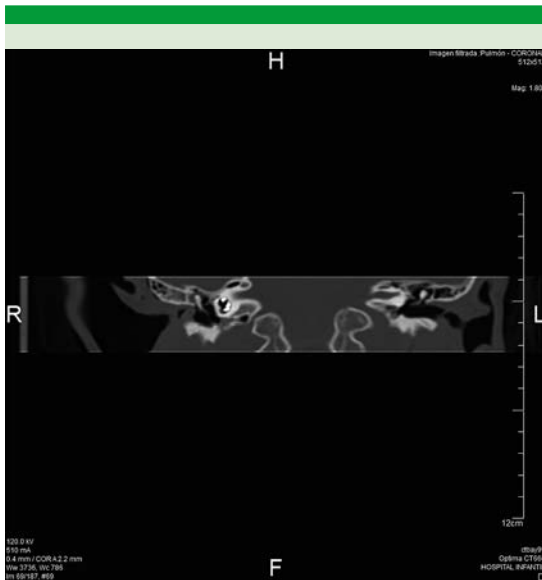


Figura 2. Corte coronal con electrodos en contacto.



Figura 3. Cocleostomía en paciente.

importaron los archivos DICOM provenientes de una tomografía computada para realizar la segmentación y diseño del modelo donde se segmentaron los huesecillos del oído, el nervio facial y el hueso temporal utilizando por color las máscaras que se enlistan en el Cuadro 1.

- Al finalizar con la segmentación el diseño se exporta en archivo .stl para



Figura 4. Cocleostomía en modelo.

Cuadro 1. Colores de las máscaras segmentadas

Color	Parte segmentada
Rosa	Huesecillos del oído
Amarillo	Nervio fácil
Azul	Hueso temporal
Rojo	Hueso temporal parte del conducto auditivo interno

importarlo al programa (GrabCAD) de la impresora 3D (Figura 5A y B), en este caso una Objet260 Connex3 de Stratasys (Figura 6), aquí se acomoda la pieza como ensamble y se eligen los materiales para su impresión (Cuadro 2).

- El tiempo de impresión fue de 10 horas y 41 minutos, posterior a la impresión se realiza una limpieza donde se remueve toda la resina de soporte con presión de agua.

Un resumen del ciclo de desarrollo de este caso se muestra en la Figura 7.

Caso 2

Paciente masculino de 4 años con detección de hipoacusia neurosensorial profunda bilateral

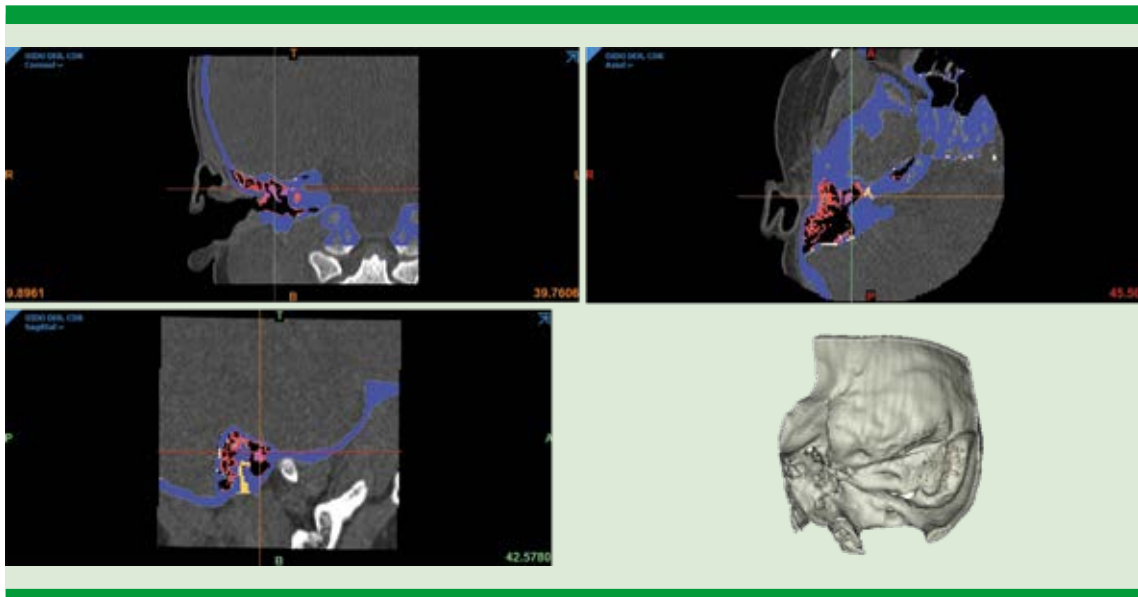


Figura 5. Segmentación en el programa Materialise Mimics.



Figura 6. Impresora Stratasys.

Cuadro 2. Materiales utilizados para la impresión 3D

Material	Descripción	Pieza
Tango plus	Flexible y translúcido	Nervio facial
Vero Clear	Rígido y transparente	Hueso temporal parte del conducto auditivo interno
Vero White Plus	Rígido y blanco	Hueso temporal y huesecillos del oído

negativo, sin pruebas de conexina; en el estudio de tomografía computada se encontró una anatomía cocleovestibular normal, con trayecto del nervio facial completamente normal (Figura 8).

Aplicación de la tecnología 3D

- Se realizó la réplica de ambos huesos temporales, en este caso de estudio se imprimió con dos tonalidades para tener mejor visualización de las siguientes partes anatómicas segmentadas (Cuadro 3).

detectada por tamizaje auditivo del gobierno del estado a la edad de dos años, citomegalovirus

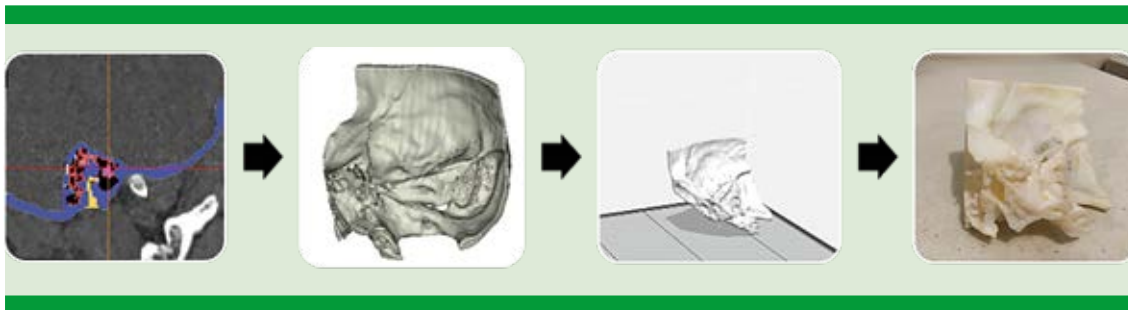


Figura 7. Ciclo de desarrollo del modelo en 3D (segmentación, renderizado e impresión 3D).

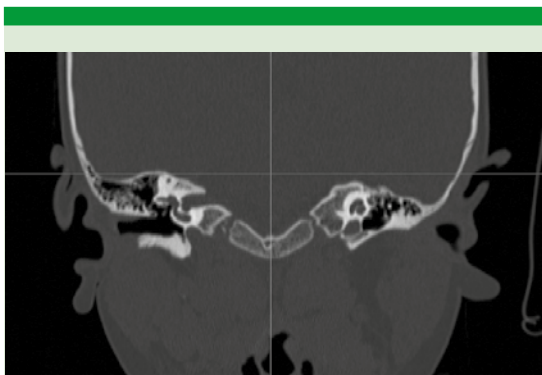


Figura 8. Corte coronal con vistas a las cavidades del oído interno.

Cuadro 3. Colores de las máscaras segmentadas

Color	Parte segmentada
Verde	Cóclea
Azul	Huesecillos
Amarillo	Nervio facial
Gris	Hueso

- Al finalizar con la segmentación (**Figura 9**) el diseño se exporta en archivo .stl para importarlo al programa (GrabCAD) de la impresora 3D, en este caso una Objet260 Connex3 de Stratasys (**Figura 6**), aquí se acomoda la pieza como ensamble y se eligen los materiales para

su impresión los cuales se repiten las piezas por material en el **Cuadro 4** ya que el programa puede combinar materiales para dar diferentes tonalidades y densidades.

- El tiempo de impresión fue de nueve horas y un minuto, posterior a la impresión se realiza una limpieza donde se remueve toda la resina de soporte con presión de agua.

Un resumen del ciclo de desarrollo del caso de estudio de este paciente se muestra en la **Figura 10**.

Resultados

Los modelos se realizaron con adecuada similitud anatómica; asimismo, el material permitió adecuada sensación durante el fresado muy similar a la de un hueso temporal, a excepción en el área del laberinto donde la densidad no varía en forma importante, la cavidades aéreas son llenadas por una gelatina de coloración de densidad diferente a la que se utiliza en el hueso compacto, el fresado genera un polvo similar al del hueso temporal, así que la irrigación/aspiración es necesaria durante el fresado, los hallazgos intraoperatorios son muy similares a los del paciente durante la cirugía, como se muestra en el fresado del caso 1 (**Figura 11**).

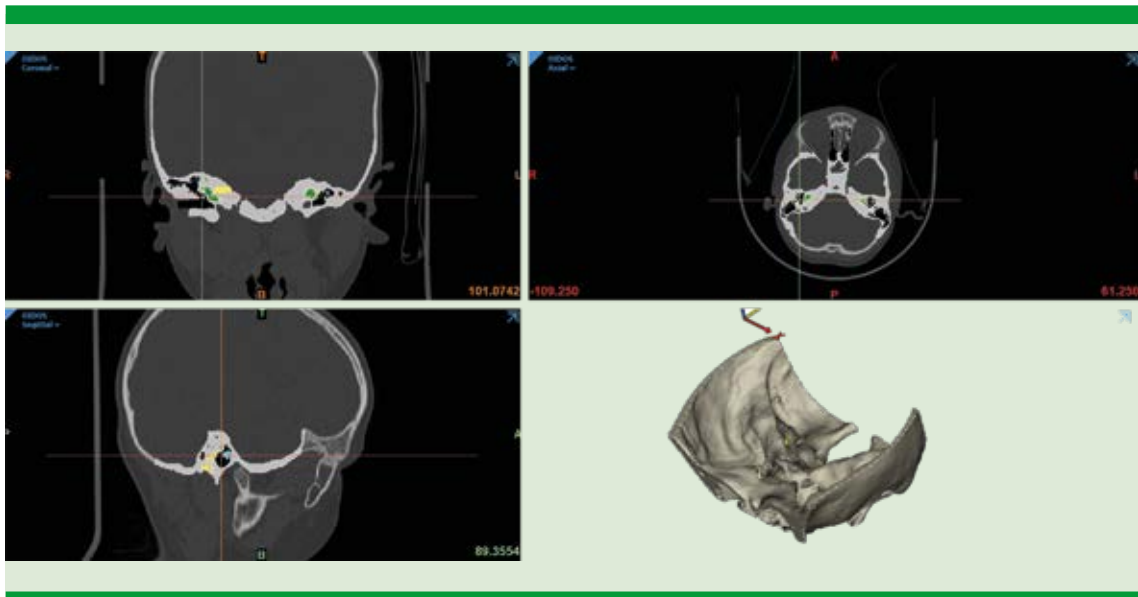


Figura 9. Segmentación en el programa Materialise Mimics.

Cuadro 4. Materiales que se utilizaron para la impresión en 3D

Material	Descripción	Pieza
Tango plus	Flexible y translúcido	Nervio facial
Vero Magenta	Rígido y color magenta	Huesecillos, cóclea y nervio facial
Vero White Plus	Rígido y blanco	Hueso temporal y cóclea

La neumatización de la mastoides es muy adecuada en los tres modelos, puede diferenciarse en forma adecuada el trayecto del nervio facial con diferenciación de color.

DISCUSIÓN

La disección de hueso temporal de cadáver ha sido durante mucho tiempo la forma de capacitación del personal médico para la cirugía del oído, en los últimos años la accesibilidad a las partes de los cadáveres ha sido más complicada

en todo el mundo, debido a las modificaciones de las legislaciones en torno a los cadáveres o a sus partes, por esta razón deben diseñarse técnicas de capacitación alternativas.³

Estos métodos de capacitación alternativos pueden ir desde simuladores de realidad virtual con retroalimentación de tecnología háptica, aunque este tipo de modelos en seco no proveen la experiencia del fresado completo, por lo que el adiestramiento no es integral.⁴

Desde hace varios años se han comercializado huesos temporales sintéticos, aunque son limitados a pocas variaciones anatómicas, recientemente se ha reportado la utilidad de las impresoras 3D en modelos diseñados con tomografía computada de alta definición, éstos han venido a demostrar un alto grado de fidelidad anatómica, con la ventaja de poder utilizar la fresa quirúrgica con una sensación semejante a la realidad, nuestro modelo puede facilitar el desarrollo de un adiestramiento para la educación



Figura 10. Ciclo de desarrollo del modelo en 3D (segmentación, renderizado e impresión 3D).



Figura 11. Fresado del caso 1 en el Hospital Infantil.

de residentes y cirujanos con intención de mejorar su destreza quirúrgica en la cirugía de oído.⁵

CONCLUSIONES

Con este modelo de impresión en 3D puede mejorarse el adiestramiento quirúrgico en el fresado

de hueso temporal, puede ser posible imprimir el caso a operar y practicarlo antes de llevar al paciente a cirugía; en caso de problemas o de malformaciones anatómicas puede evaluarse el abordaje adecuado mejorando el resultado del caso quirúrgico.

REFERENCIAS

1. Max H, Quinn A, Hsieh T, Strong B, Steele T. Optimization of 3D print material for the recreation of patient-specific temporal bone models. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2018; 127 (5). doi: 10.1177/0003489418764987
2. Takahashi K, Morita Y, Shinsuke O, Kubota S. Creating an optimal 3D printed model for temporal bone dissection training. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2017; 126 (7). doi: 10.1177/0003489417705395
3. Mowry S, Hachem J, Myers C, Solares C, Weinberger P. A novel temporal bone simulation model using 3D printing techniques. *Otol Neurotol* 2015; 36 (9). doi: 10.1097/MAO.0000000000000848
4. Austin R, Kimbell J, Webster C, Harrison O, Formeister E. Multi-material 3D models for temporal bone surgical simulation *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2015; 124 (7). doi: 10.1177/0003489415570937
5. Longfield EA, et al. 3D printed pediatric temporal bone: a novel training model. *Otol Neurotol* 2015; 36 (5). doi: 10.1097/MAO.0000000000000750



Otoesclerosis severa avanzada, osificada y cavitaria e implante coclear

Severe advanced, ossified and cavitary otosclerosis and cochlear implant.

José Alberto López-Sisniega, Simón González-Domínguez, César Cardona-Martínez,
Rosa Oliva Paquot-Chico, Luis M Valdés-Oberhauser

Resumen

ANTECEDENTES: La otoesclerosis es una enfermedad del tejido óseo de la cápsula ótica.

CASOS CLÍNICOS: Se describen dos casos de otoesclerosis coclear severa avanzada en dos pacientes, uno de 57 años y otro de 49, quienes requirieron la colocación quirúrgica de implante coclear. Uno tenía osificación coclear severa y otro lesiones cocleares cavitarias.

CONCLUSIONES: La otoesclerosis avanzada severa es un reto diagnóstico y terapéutico en el que los resultados de éxito en ganancia auditiva pueden ser inciertos.

PALABRAS CLAVE: Otoesclerosis; implante coclear; hipoacusia; osificación.

Abstract

BACKGROUND: Otosclerosis is a disease of the bone tissue of the otic capsule.

CLINICAL CASES: Two cases of far advanced severe otosclerosis in two patients of 57 and 49-years-old are described, both needed cochlear implant surgery. One case presented a severe cochlear ossification and the other showed cochlear cavitary lesions.

CONCLUSIONS: Severe advanced otosclerosis is a diagnostic and therapeutic challenge in which results of success in hearing gain may be uncertain.

KEYWORDS: Otosclerosis; Cochlear implant; Hearing loss; Ossification.

Instituto José David AC Chihuahua, Chihuahua. Asociación Ayúdame a Oír AC. Hospital Ángeles Chihuahua y Christus Muguerza del Parque Chihuahua, Chihuahua, México.

Recibido: 19 de junio 2020

Aceptado: 21 de septiembre 2020

Correspondencia

José Alberto López Sisniega
jlopezsisniega@angeleschihuahua.com

Este artículo debe citarse como

López-Sisniega JA, González-Domínguez S, Cardona-Martínez C, Paquot-Chico RO, Valdés-Oberhauser LM. Otoesclerosis severa avanzada, osificada y cavitaria e implante coclear. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 212-220.



ANTECEDENTES

La otoesclerosis es una enfermedad del tejido óseo de la cápsula ótica. Existe oseodistrofia con alteración en la osteólisis y osteogénesis, que llevan a una histopatología muy peculiar de proliferación vascular, tejido óseo inmaduro esponjoso, con células gigantes osteoclasticas (otoespongiosis), resorción ósea y formación de nuevo tejido conectivo deficiente en colágena (otoesclerosis).¹ La remodelación ósea activa es efectuada en la placa endocondral de la cápsula ótica. Generalmente afecta la región de la físsula ante fenestram y cuando daña la platina produce la hipoacusia conductiva clásica.

Afecta a la población caucásica en una proporción de 1:3000 y, de acuerdo con investigaciones, existen factores genéticos, hormonales y por infección viral. La otoesclerosis puede observarse en 12% de la población sin manifestaciones clínicas. Se hereda mediante transmisión autosómica dominante con penetrancia variable (40%).²

Existe otoesclerosis con participación sensorial en 10% de los casos, con progresión de la enfermedad hacia la pared lateral del endosteum coclear, con atrofia de la estría vascularis y del ligamento espiral, que lleva a la alteración iónica de la endolinfa con disfunción de las células ciliadas. El acúfeno se manifiesta en diversas intensidades en estos casos. Además de la progresión coclear, puede existir afección al laberinto, en el vestíbulo y los canales semi-circulares agregando vértigo e inestabilidad a la hipoacusia y acúfeno.¹

En casos avanzados de otoesclerosis coclear, pueden observarse lesiones de osificación difusa y lesiones cavitarias. Las de osificación pueden llegar a ser tan severas y coexistir una parcial o total obstrucción de las rampas cocleares. La fisiopatología de las lesiones cavitarias no está

bien esclarecida. Éstas las describió Schucknecht, donde se observan cavidades alrededor de las vuelas apicales y medias de la cóclea, las paredes suelen ser muy delgadas de hueso otoesclerótico con fino fluido fibrilar en su interior. En su alrededor existen lesiones de otoespongiosis y otoesclerosis. El ligamento espiral se encuentra hialinizado.³

Existen reportes radiológicos en otoesclerosis avanzada con alteraciones en 26% de los casos. En 29% de éstos se colocó un implante coclear y se encontró osificación durante la cirugía, con un consecuente mayor tiempo de fresado. No se identificó relación entre la osificación y la ganancia auditiva posimplantación.⁴

CASOS CLÍNICOS

Se describen dos casos de otoesclerosis coclear severa avanzada, uno con osificación coclear y otro con lesiones cavitarias, que fueron intervenidos de colocación de implante coclear por ser portadores de restos auditivos en los estudios audiológicos y no observar beneficio en la utilización de aparatos auditivos. Ambos tuvieron una evolución lenta e insidiosa de la enfermedad.

Caso 1

Paciente masculino de 57 años, quien manifestó desde los 26 años una hipoacusia progresiva, severa, de tipo mixto, de predominio sensorial bilateral, asociado con acúfenos e inestabilidad ocasional. Se le diagnosticó otoesclerosis coclear, adaptándosele desde entonces auxiliares auditivos. No se le ofreció tratamiento quirúrgico de estapedectomía por considerarse no apto. La hipoacusia fue aumentando gradualmente hasta llegar a ser prácticamente de tipo de restos auditivos de ambos oídos donde los aparatos auditivos ya no ofrecieron ganancia auditiva alguna.

La tomografía computada de alta resolución y resonancia magnética revelaron datos de otoespongiosis con zonas radiolúcidas pericocleares, pero con aparente permeabilidad de rampas cocleares (**Figura 1**). Las pruebas de emisiones otoacústicas se encontraron ausentes.

Posterior a la valoración integral se decidió la colocación de implante coclear perimodiolar de lado derecho. En el periodo transoperatorio al realizar la colostomía, se observó osificación de rampa timpánica hasta 4 mm de profundidad, sin lograr encontrar permeabilidad de la misma. Se decidió fresar hacia la rampa vestibular encontrando permeabilidad adecuada y se pudo colocar el tallo principal de electrodos en su totalidad. El control radiográfico fue correcto al observarse el tallo principal de electrodos en posición perimodiolar (**Figura 2**); las mediciones eléctricas transoperatorias de impedancias de electrodos (**Figura 3**) y de telemetría neural se observaron con una buena respuesta (**Figura 4**).

El paciente cursó con una evolución posquirúrgica adecuada y refirió decremento del acúfeno en el oído operado al tener el implante coclear funcionando. La ganancia auditiva en las calibraciones del implante fue positiva y aceptable (**Figura 5**). Se le propuso la colocación de im-

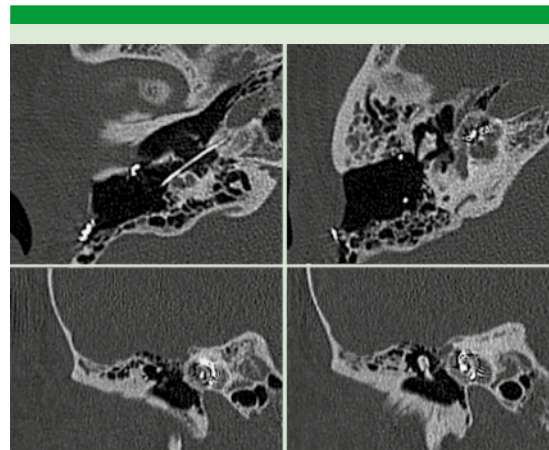


Figura 2. Electrodo recto con introducción completa en la rampa vestibular coclear.

plante coclear en el oído contra lateral, pero no deseó llevarlo a cabo.

Caso 2

Paciente femenina de 49 años de edad, quien desde los 17 años padecía una hipoacusia lentamente progresiva. Se le diagnosticó una hipoacusia mixta de predominio sensorial bilateral severa y le colocaron aparatos auditivos a los 27 años. Tres años previos a su valoración, los auxiliares auditivos ya no le eran útiles para escuchar

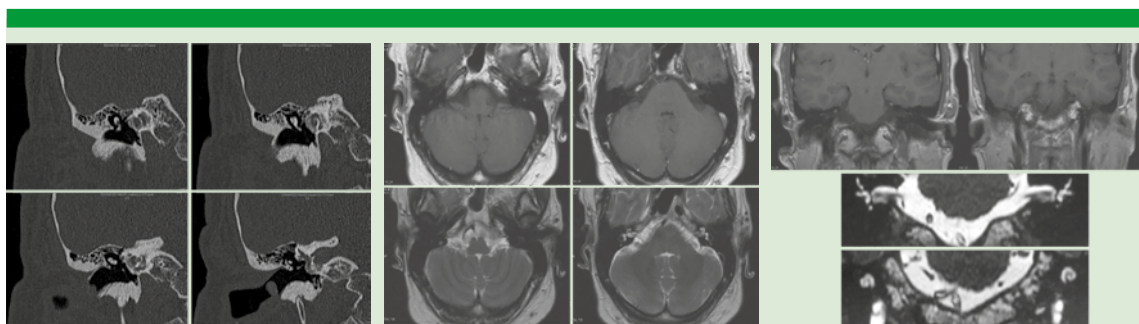


Figura 1. Focos de otoespongiosis pericoclear con radiolucidez, junto con osificación parcial coclear.

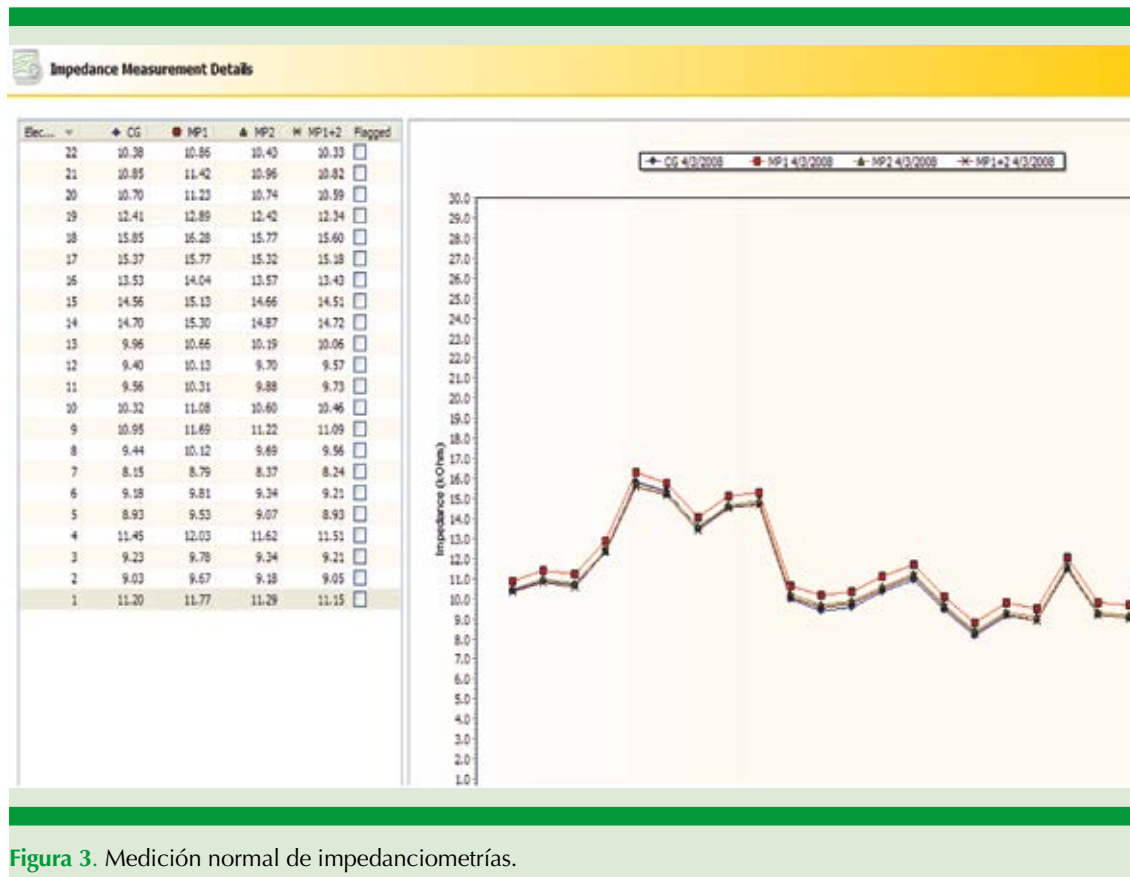


Figura 3. Medición normal de impedanciometrías.

y desarrolló una buena lectura labio-facial para comunicarse. No tenía antecedentes quirúrgicos de oídos. La tomografía computada de alta resolución y resonancia magnética a la valoración revelaron una probable osificación bilateral muy severa con áreas de radiolucidez y lagunares o de licuefacción (**Figura 6**). La audiometría tonal reveló restos auditivos bilaterales. Las emisiones otoacústicas se encontraron ausentes.

Se decidió la colocación de un implante de doble tallo de electrodos (doble *array*) o la colocación de un implante recto, según los hallazgos quirúrgicos de permeabilidad de las rampas cocleares.

Durante la cirugía se observó una masa quística, blanquecina, distensible y blanda en la zona

coclear. No se observó tejido óseo alguno, ni rampas cocleares. Se decidió incidir la región coclear, en el sitio donde normalmente se encontraría la ventana redonda observando la salida de líquido citrino. Se introdujo un medidor de implante o *dummy* y se observó la completa introducción del tallo principal de electrodos. Se decidió colocar un implante coclear con el tallo principal de electrodos de tipo recto, porque ya no fue necesario utilizar el de doble tallo (doble *array*). Se practicó control radiológico observando lateralización del tallo de electrodos de la cavidad quística (**Figura 7**). Las mediciones eléctricas transoperatorias de impedancia fueron normales (**Figura 8**); sin embargo, no se detectaron respuestas confiables en la telemetría neural (**Figura 9**).

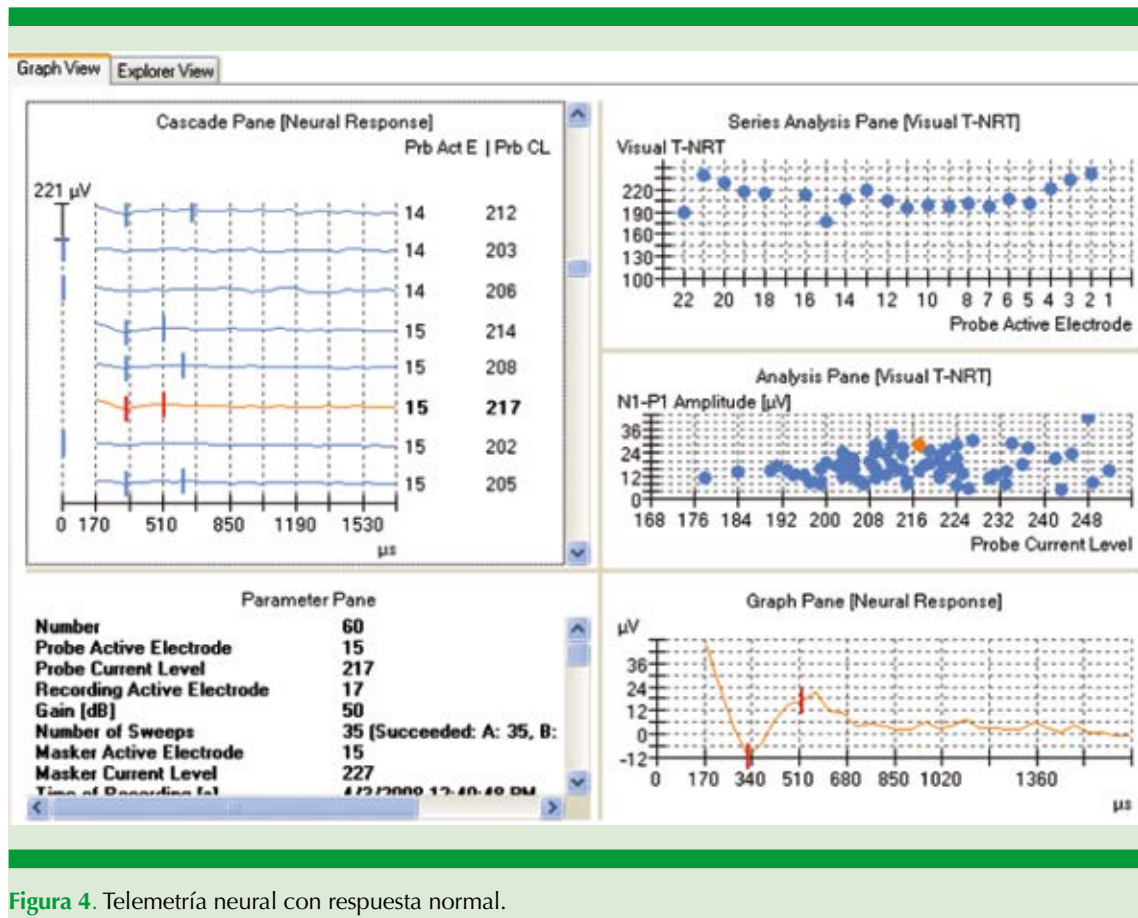


Figura 4. Telemetría neural con respuesta normal.

La paciente tuvo una evolución posquirúrgica satisfactoria. En la calibración del implante refirió una ganancia auditiva positiva, aunque con audición tenue y muy lejana. Se utilizaron varios programas de calibración a muy alta intensidad, en los niveles T y C con la finalidad de mejorar la comprensión del lenguaje (Figura 10). Desafortunadamente, la paciente actualmente ya no utiliza el implante para comunicarse, solo la lectura labio-facial porque refiere un malestar auditivo. Se le propuso la posibilidad de un cambio de implante por uno de tipo perimodiolar; esto con la teoría de colocar el tallo principal de electrodos más cerca del modiollo y de esta manera obtener mejor ganancia auditiva con menor intensidad eléctrica en la estimulación. La

paciente decidió no proceder quirúrgicamente con el cambio de implante.

DISCUSIÓN

Con los dos casos comunicados se observa que, en algunos casos, la enfermedad por otoesclerosis resulta en una hipoacusia sensorineural muy profunda, donde la colocación del implante coclear es necesaria, porque los aparatos auditivos externos no muestran utilidad para lograr que los pacientes escuchen. Ambos casos muestran desde décadas previas a su atención quirúrgica, una progresión lenta de la enfermedad y de la hipoacusia. La cirugía de estapedectomía es la indicada para pacientes con otoesclerosis con un

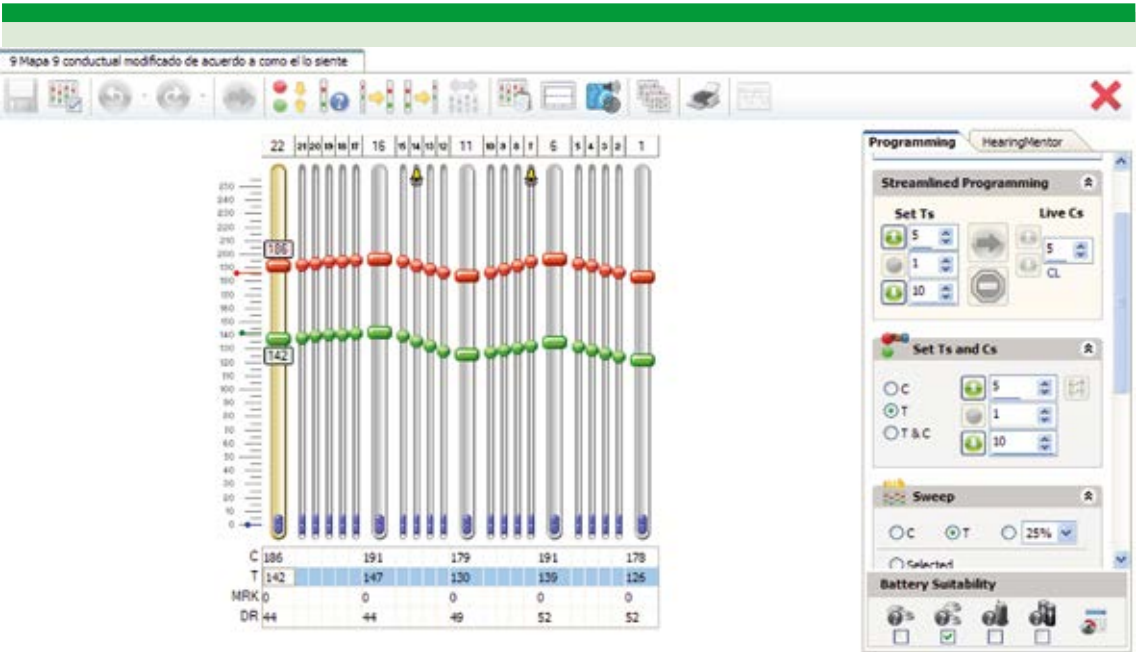


Figura 5. Mapa de calibración auditiva (niveles C y T).

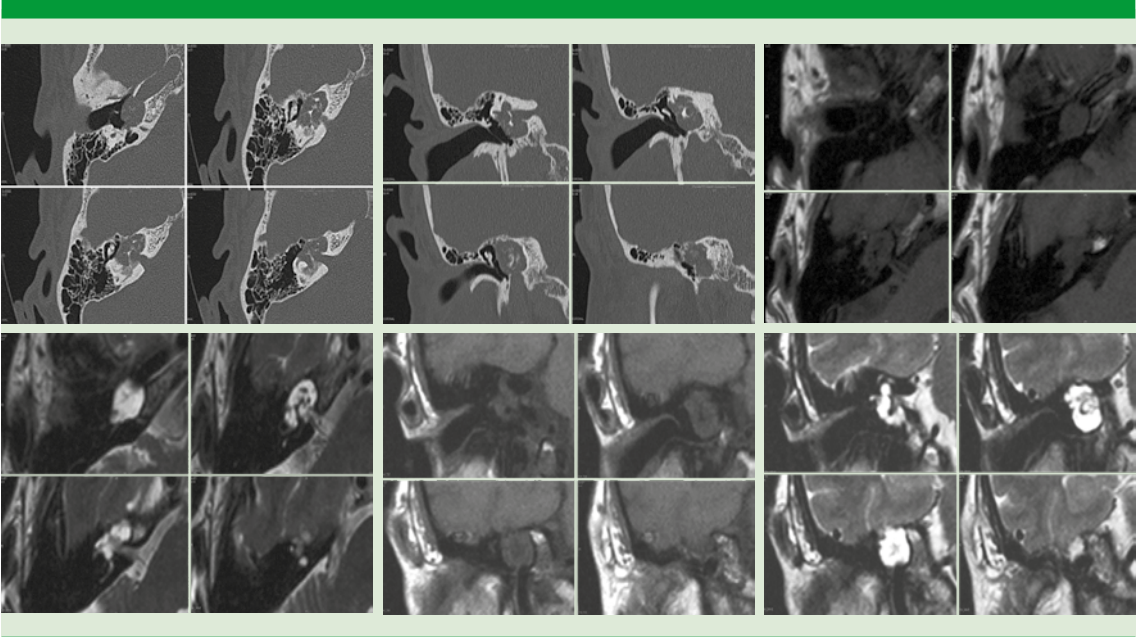


Figura 6. Lesiones cocleares cavitarias y quísticas, sin visualización clara de rampas con focos de otospongiosis perilabirínticos.

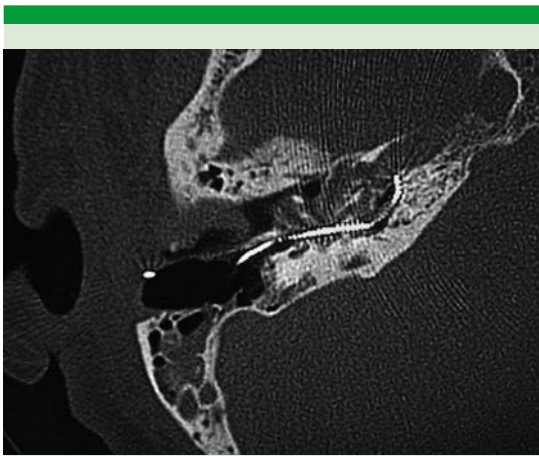


Figura 7. Electrodo recto en las paredes de la cavidad quística coclear.

componente conductivo y en algunos casos con un componente mixto, conductivo y sensorial.⁵ Si hay una alteración audiométrica meramente sensorial, la cirugía no está indicada.

Existen algunos casos de hipoacusia mixta, severa o profunda, en que la cirugía es posible, se realiza estapedectomía y después se adaptan

auxiliares auditivos complementarios para tratar de evitar de inicio la colocación de implante coclear.⁶ Para llevar esto a cabo, el paciente debe tener una adecuada captación fonémica en la logaudiometría o no tener daño en el nervio auditivo. Estos dos casos presentaban restos auditivos, por lo que no era posible llevar esto a cabo. Es recomendable no colocar el implante coclear, si existe la posibilidad de llevar a cabo la estapedectomía y posteriormente adaptar un auxiliar auditivo, porque la cirugía de colocación de implante coclear induce con mayor frecuencia complicaciones en pacientes con otosclerosis severa, como mayor fresado por osificación, estimulación al nervio facial por la otospongiosis, fenómeno de Gusher donde puede existir salida de líquido cefalorraquídeo en el sitio de la cocleostomía.⁵

El primer caso requirió mayor fresado al realizar la cocleostomía, porque no se logró visualizar la rampa timpánica después de llevar 4 mm de profundidad; afortunadamente pudo colocarse de manera adecuada el total de electrodos en la rampa vestibular. En el segundo caso, un hallazgo sorpresivo fue una masa quística, distensible,

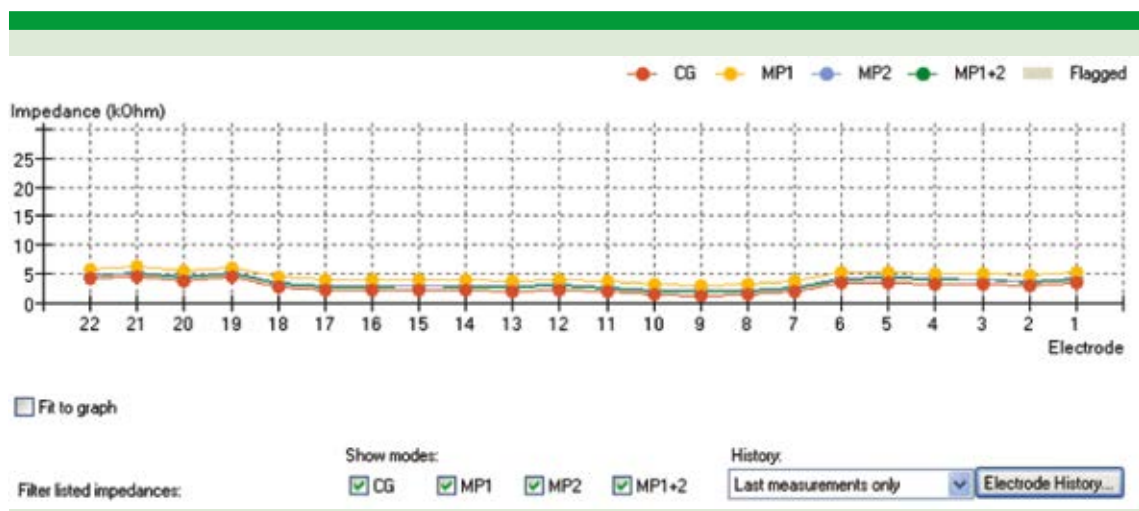


Figura 8. Medición normal de impedancias.

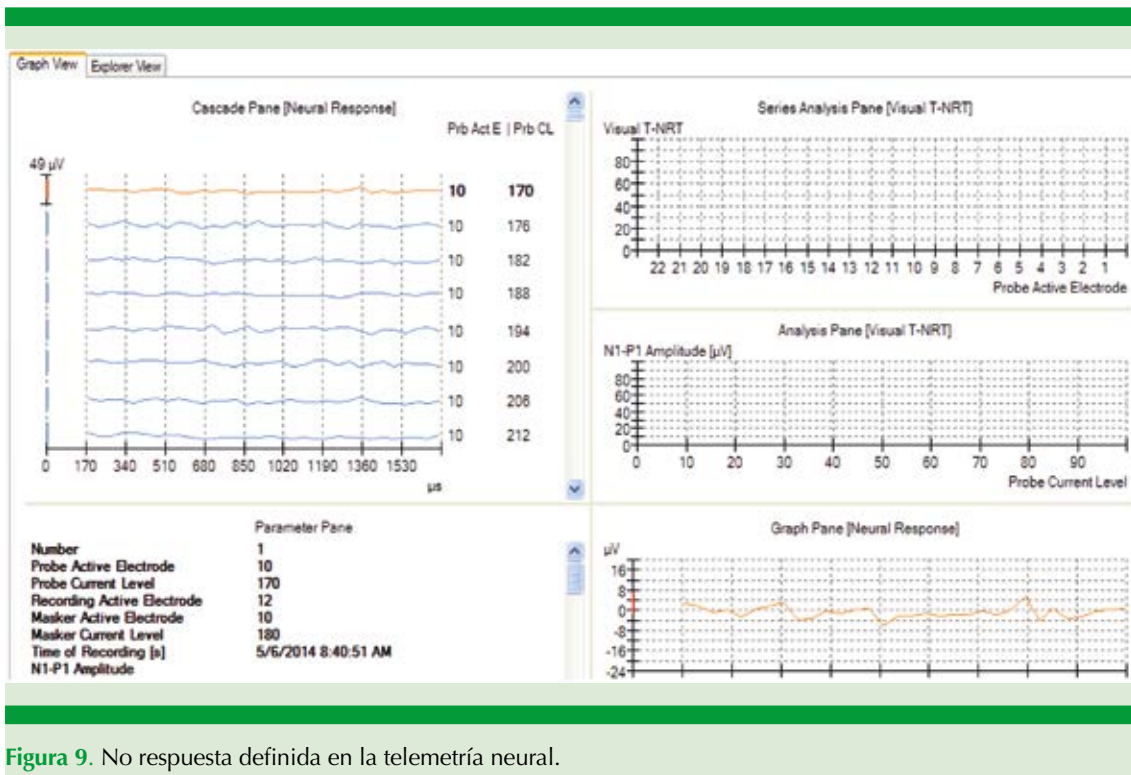


Figura 9. No respuesta definida en la telemetría neural.

en el promontorio coclear. En la valoración prequirúrgica se determinó que también pudiese existir una osificación masiva, motivo por el que se solicitó la colocación de un implante coclear de doble tallo (doble *array*) y, al observar que no era osificación, se colocó un implante con un tallo principal de electrodos tipo recto, con la introducción total de los mismos. Las mediciones eléctricas de impedancias y el control radiográfico fueron adecuados; sin embargo, la respuesta en la telemetría neural no fue positiva. En la primera calibración audiológica, cinco semanas después, se observó una respuesta lejana a intensidades altas. Después de varias calibraciones y de dos años de utilizar el implante, la paciente desafortunadamente dejó de utilizarlo porque en ocasiones le molestaban los sonidos emitidos al utilizarlo. Actualmente sigue comunicándose por medio de lectura labio-facial. Este caso describe una enfermedad de otoesclerosis avanzada severa de tipo cavitaria.

La otoesclerosis cavitaria se ha descrito previamente en la bibliografía médica. También se menciona una escasa ganancia auditiva con la colocación de implante coclear. Solo encontramos dos artículos previamente publicados al respecto.^{2,3}

Schucknecht fue el primero en describir una lesión cavitaria en otoesclerosis. El primer artículo clínico de otoesclerosis cavitaria fue descrito por Makarem en 2008.² La bibliografía médica ha reportado casos de otoesclerosis, incluso con un componente puramente conductivo, a los que se realizó una estapedectomía; sin embargo, el resultado auditivo posquirúrgico no ha sido exitoso. Esto se debe a que en la otoesclerosis avanzada puede existir una lesión cavitaria o una tercera ventana, además de las ventanas o rampas timpánicas, la que impediría la adecuada transmisión de sonido al nervio auditivo.^{7,8}



Figura 10. Programa de calibración auditiva con niveles de confort altos (niveles C).

La otoesclerosis avanzada severa es un reto diagnóstico y terapéutico donde los resultados de éxito en ganancia auditiva pueden ser inciertos. La adecuada valoración preoperatoria es determinante en la toma de una buena decisión para la intervención quirúrgica del paciente.

REFERENCIAS

1. Dunas AR, Swalje A.T. Cochlear implant in far advanced otosclerosis: hearing results and complications. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2018; 38 (5): 445-452. doi: 10.14639/0392-100X-1442
2. Makarem AO, Linthicum FH. Cavitating otosclerosis. *Otol Neurotol* 2008; 29 (5): 730-731. doi: 10.1097/MAO.0b013e3181799763
3. Makarem AO, Hoang TA. Caveating otosclerosis: clinical, radiologic, and histopathologic correlations.

4. Semaan MT, Genhani NC. Cochlear implantation outcomes in patients with far advanced otosclerosis. *Am J Otolaryngol* 2012; 33 (5): 608-614. doi: 10.1016/j.amjoto.2012.05.001.
5. West N, Brand M, Foghsgaard S, Cayé-Thomasen P. Surgical results and complications of cochlear implantation in far-advanced otosclerosis. *J Int Adv Otol* 2017; 13(3):304-307. doi: 10.5152/iao.2017.3998. PMID: 29360086.
6. Van Loon MC, Merkus P. Stapedotomy in cochlear implant candidates with far advanced otosclerosis: a systemic review of the literature and meta-analysis. *Otol Neurotol* 2014; 35 (10): 1707-1714
7. Bae YJ, Shim YJ. "Third window" and "single window" effects impede surgical success: Analysis of retrofenestral otosclerosis involving the auditory canal or round window. *J Clin Med* 2019; 8 (8): 1182. doi: 10.3390/jcm8081182
8. Richard C, Linthicum HF. An unexpected third window in a case of advanced cavitating otosclerosis. *Otol Neurotol*. 2012; 33 (6): 47-48. doi: 10.1097/MAO.0b013e318245cb3b



Manejo integral del síndrome de Meige

Integral management of Meige's syndrome.

Víctor Manuel Valadez-Jiménez,¹ Alejandro Francisco Rodríguez-Mauricio,² Salvador José Santamaría-Molina,⁴ Alicia Valentina García-Arango³

Resumen

ANTECEDENTES: El síndrome de Meige es un tipo de distonía craneal focal caracterizado por blefaroespasmos y distonía oromandibular, se asocia con movimientos complejos de los músculos bajos de la cara, boca, mandíbula, lengua, faringe y cuello. Su causa se desconoce, pero tiene relación estrecha con la predisposición genética y desencadenantes ambientales. El tratamiento se divide en cuatro grupos: medicamentos orales, toxina botulínica, rehabilitación y procedimientos avanzados, como la estimulación cerebral profunda y la cirugía de denervación en casos resistentes.

CASO CLÍNICO: Paciente femenina de 66 años de edad con distonía oromandibular, faríngea y laríngea con blefaroespasmos, disfonía, disnea y disfagia, tratada con terapia de voz, habla y deglución y toxina botulínica con buenos resultados.

CONCLUSIONES: En el caso comunicado se hace evidente la importancia del estudio clínico e instrumentado y el tratamiento foniatrico que abarca la intervención farmacológica, rehabilitadora, cambio de hábitos y medidas de deglución segura.

PALABRAS CLAVE: Síndrome de Meige; distonía oromandibular; blefaroespasmos; laringoespasmos; terapia foniatrica; toxina botulínica.

Abstract

BACKGROUND: Meige's syndrome is a type of cranial focal dystonia characterized by blepharospasm and oromandibular dystonia, which is associated with complex movements of the lower muscles of the face, mouth, jaw, tongue, pharynx and neck. It is of unknown cause, but with a close relationship between a genetic predisposition and environmental triggers. The treatment options are divided into four groups: oral medications, botulinum toxin, rehabilitation and others advanced procedures, such as deep brain stimulation and denervation surgery in refractory cases.

CLINICAL CASE: A 66-year-old female patient with oromandibular, pharyngeal and laryngeal dystonia with blepharospasm, dysphonia, dyspnea and dysphagia, treated with voice therapy, speech and swallowing and botulinum toxin with good results.

CONCLUSIONS: In the reported case, the importance of the clinical and instrumented study and the speech therapy that includes pharmacological, rehabilitative intervention, change of habits and safe swallowing measures becomes evident.

KEYWORDS: Meige's syndrome; Oromandibular dystonia; Blepharospasm; Laryngospasm; Speech therapy; Botulinum toxin.

¹ Médico foniatra y Jefe de la División de Foniatria.

² Médico residente de la especialidad de Audiología, Otoneurología y Foniatria.

³ Licenciada en Terapia de Comunicación Humana, Servicio de Terapia de Voz, Habla y Deglución.

Instituto Nacional de Rehabilitación Luis Guillermo Ibarra Ibarra, Ciudad de México, México.

⁴ Neurólogo adscrito y titular de la Clínica de movimientos anormales y toxina botulínica, Servicio de Neurología, Hospital de Especialidades Dr. Antonio Fraga Mouret, Centro Médico Nacional La Raza, IMSS, Ciudad de México, México.

Recibido: 29 de mayo 2020

Aceptado: 24 de septiembre 2020

Correspondencia

Víctor Manuel Valadez Jiménez
vicman71@hotmail.com

Este artículo debe citarse como

Valadez-Jiménez VM, Rodríguez-Mauricio AF, Santamaría-Molina SJ, García-Arango AV. Manejo integral del síndrome de Meige. An Orl Mex. 2020; 65 (4): 221-233.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 66 años que acudió a la División de Foniatría del Instituto Nacional de Rehabilitación Luis Guillermo Ibarra Ibarra en la Ciudad de México. Fue valorada por el servicio de Neurología en otra institución, por movimientos involuntarios espasmódicos constantes en el párpado superior y la región superciliar izquierda de 10 años de evolución, con progresión en intensidad y posterior extensión al párpado contralateral en los últimos dos años; se le diagnosticó distonía, que fue tratada con carbamazepina. Posteriormente, fue valorada en la misma institución pública en octubre de 2017 por padecer estridor laríngeo y disnea; por medio de laringoscopia directa se diagnosticó supraglotitis y se encontraron movimientos paradójicos de los pliegues vocales, con indicación de intubación orotraqueal debido a la disnea y estridor importantes; sin embargo, la paciente y familiares no lo aceptaron por lo que se indicaron nebulizaciones con medicamento no especificado y sin seguimiento posterior y aparente evolución estable. Además, acudió a psiquiatra particular quien diagnosticó trastorno de ansiedad generalizado y le prescribió olanzapina. Seis meses después, en abril de 2018, se realizó resonancia magnética con signos de leucoaraiosis en sustancia blanca periventricular, subcortical y pontina. Permaneció en seguimiento con citas recurrentes para control de dosis de los medicamentos prescritos.

En octubre de 2018 acudió al Instituto Nacional de Rehabilitación por padecer desde hacía 10 meses voz ronca, hipofónica, entrecortada, con fatiga vocal de evolución progresiva y espasmos laríngeos, que se exacerbaba en el transcurso del día y en situaciones de estrés y se atenuaba con risperidona y clonazepam, se acompañaba de sensación de cuerpo extraño en la faringe con necesidad de aclaramiento constante.

Además, tenía problema de habla de inicio insidioso, caracterizada por ser lenta y monótona de evolución lentamente progresiva. También refería problema de deglución caracterizado por sensación de atragantamiento al ingerir sólidos secos, líquidos y secreciones, con pérdida ponderal de 15 kg en 6 meses, sin modificaciones de los patrones de alimentación y estaba integrada a la dieta familiar.

En la evaluación foniatría inicial se encontró a una paciente con edad aparente similar a la cronológica, conducta auditiva de normoyente. Voz de tono agudo, timbre áspero y ligeramente estrangulada, con fonación aspirada, intensidad variable (se percibían espasmos faríngeos y laríngeos que condicionaban hipofonía y entrecortamiento de la voz); tiempo máximo fonatorio de 5 segundos, tiempo máximo espiratorio de 6 segundos, gasto respiratorio aumentado (++++/++++), gasto fonatorio disminuido (+++/++++), fatiga vocal, mecánica fonorrespiratoria incoordinada e insuficiente. Escala GRABS: *Grade* (grado de disfonía): 3, *Roughness* (ronquera): 3, *Asthenic* (voz asténica): 2, *Breathy* (voz "aireada"): 3, *Strain* (voz tensa): 2. *Dysphagia Handicap Index*: Escala funcional 30 puntos, escala emocional 51 puntos, escala física 27 puntos, total: 108 puntos: discapacidad severa.

El habla era lenta con múltiples pausas durante la elocución, disprosódica, con dificultad para la articulación de las palabras, principalmente al inicio de la elocución, en todas las modalidades del habla (espontáneo, automático, repetición, canto y lectura), respiración de tipo mixta (nasal-oral), patrón respiratorio toracoabdominal, que condicionaban ininteligibilidad. Lenguaje fluente y coherente.

Cara simétrica, con adecuada fuerza y sensibilidad, se observó blefarospasmo bilateral constante de predominio derecho con cierre de



incluso 50% de la apertura palpebral que aumentaba con la aplicación de estímulos luminosos, movimientos estereotipados de más de un segundo de duración; a la movilización activa lograba elevar el párpado superior completamente, tenía elevación de las mejillas, secundaria al movimiento palpebral, sin fenómenos espasmódicos en los músculos periorales. Grado de severidad y frecuencia, ambos de 3 de acuerdo con la escala de Jankovic, por espasmos notables con duración de más de un segundo, pero abierto más de 50% del tiempo; rinoscopia anterior sin alteraciones, cavidad oral con adecuado selle labial, lengua con adecuado tono, fuerza disminuida en el dorso de la lengua para movimiento lateral derecho, reflejo nauseoso bilateral presente y simétrico a la estimulación de pilares anteriores.

Cuello íntegro, simétrico y cilíndrico sin extensión de fenómenos espasmódicos. Extremidades íntegras, simétricas con tono adecuado, fuerza disminuida 3/5 de la escala Daniels y respuesta de reflejos osteotendinosos 3/4. El resto de la exploración física sin alteraciones.

Exámenes de laboratorio: química sanguínea, biometría hemática y pruebas de función hepática sin alteraciones.

Prueba de volumen-viscosidad: realizada bajo vigilancia con oximetría de pulso con saturación basal de oxígeno de 94-95% y con auscultación cervical; se inició con consistencia néctar y pudding en cantidades de 5, 7.5, 10 y 15 mL: tuvo necesidad de fraccionar el bolo a mayor cantidad hasta tres degluciones. No hubo eventos de desaturación. En la auscultación cervical se percibieron sonidos deglutorios sin alteraciones.

Fibronasofaringolaringoscopia flexible: esfínter velofaríngeo suficiente y competente con espasmos constantes en la fonación y en la respiración, valoración funcional con fonemas velares en sílabas, palabras y oraciones, patrón de cierre

circular sin rodete, completo, eje faringolaríngeo central, amígdala lingual eutrófica, epiglotis con movimientos de basculación y espasmos, senos piriformes libres. Pliegues aritenopiglóticos y cartílagos aritenoides con movimientos de deslizamiento lateral y rotación adecuados, pero con movimientos espasmódicos constantes, cuerdas vocales de coloración blanco nacarado con bordes libres, movimientos de abducción y aducción con movimientos espasmódicos, sin apreciarse defecto de cierre, escala basal de secreciones de Langmore grado 2 con riesgo de aspiración moderado, por acúmulo transitorio de secreciones en el vestíbulo, que la paciente era capaz de aclarar (**Figura 1**).

Evaluación fibroendoscópica de la deglución: saturación basal inicial y constante de 95%. Se otorgó consistencia pudding y néctar en cantidades de 5, 10 y 15 mL; requiriendo tres degluciones. Consistencia líquida en 5 mL, con derrame posterior que remitió tras reestructuración de instrucciones, se continúa con las cantidades de 10 y 15 mL, aclarando totalmente con dos degluciones. Sólido (1/4 y 1/2 de galleta tipo María) con estancamiento de bolo en la vallécula (**Figura 2**). Sin eventualidades adicionales.

Mecánica de la deglución: sin alteraciones estructurales observables. Sin paso de medio de contraste a la vía aérea.



Figura 1. Escala basal de secreciones.

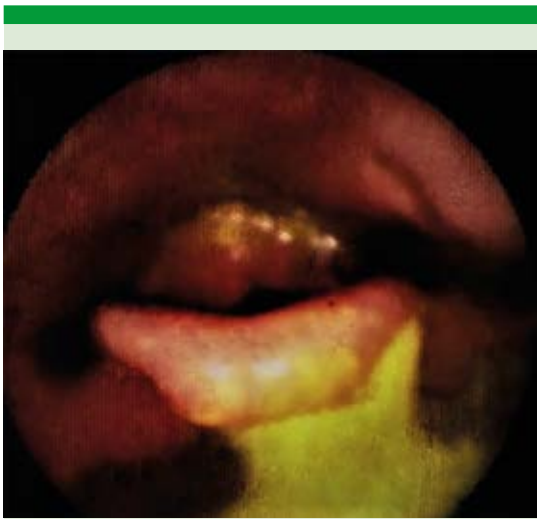


Figura 2. Evaluación fibroendoscópica de la deglución (FEES). Sólido (1/2 galleta) con estancamiento en la vallécula.

Análisis acústico de la voz: oscilograma irregular, Jitter 0.47%, Shimmer 9.84%, frecuencia fundamental 203.31Hz (**Figura 3**). Espectro-

grama de banda ancha con primer y segundo formantes definidos de manera parcial (**Figura 4**) y de banda estrecha con escasa definición de armónicos (**Figura 5**). Electroglotograma: onda glótica aperiódica, asimétrica y amplitud disminuida, cociente de apertura: 80.1% (**Figuras 6 y 7**).

Electromiografía de músculos linguales, cricotiroides y tiroaritenoides: actividad de inserción aumentada, actividad anormal no voluntaria tipo distónico. En músculos cricotiroides: actividad voluntaria con registro derecho con amplitud severamente disminuida en 300 a 500 μ V, registro izquierdo con 1000 μ V. En músculos tiroaritenoides: actividad voluntaria conservada, pero con escasa amplitud, duración y reclutamiento de los registros, con disminución del número de potenciales de unidad motora y también de volumen de contracción. En la lengua la actividad voluntaria se observó en límites inferiores de volumen de conducción.

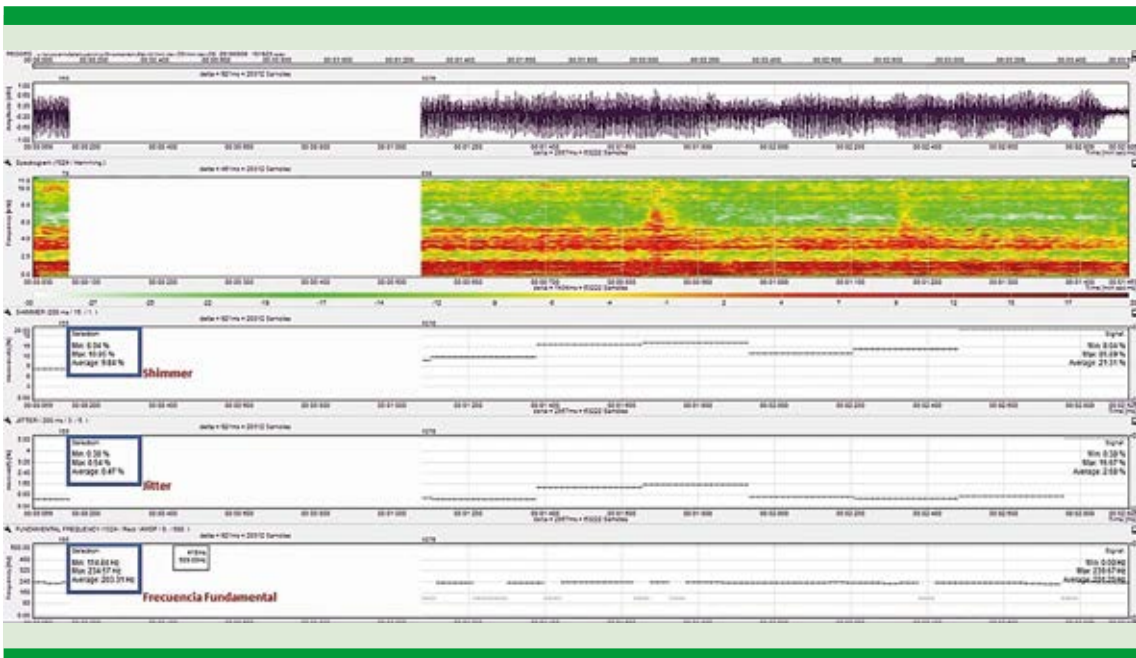


Figura 3. Análisis acústico de la voz.

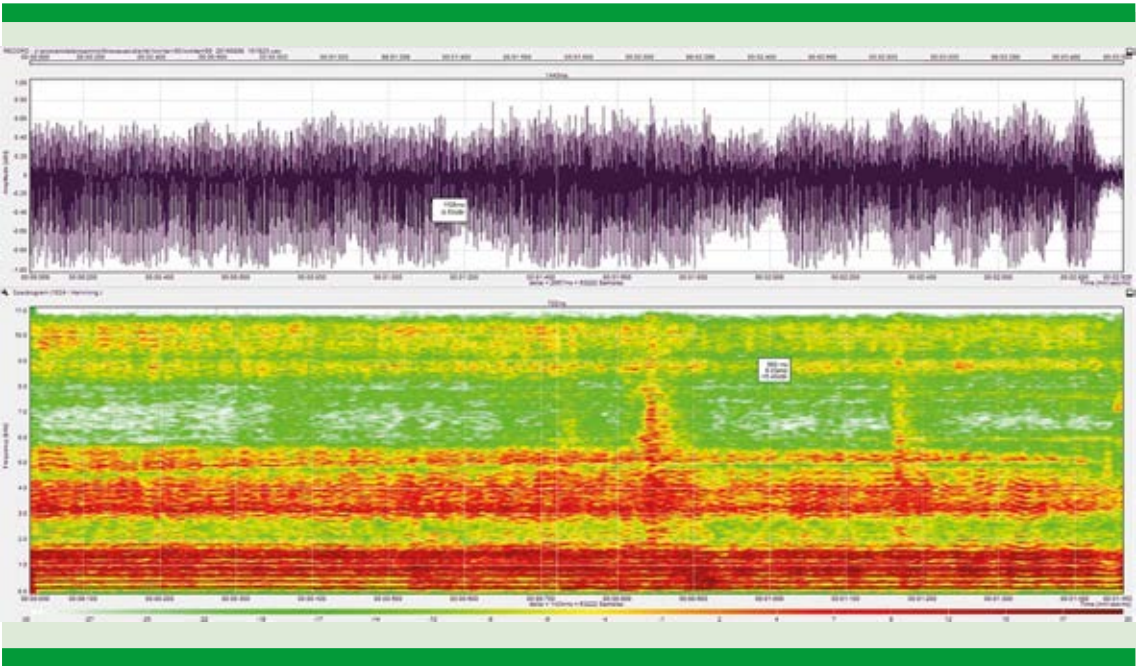


Figura 4. Espectrograma de banda ancha. Primero y segundo formantes.

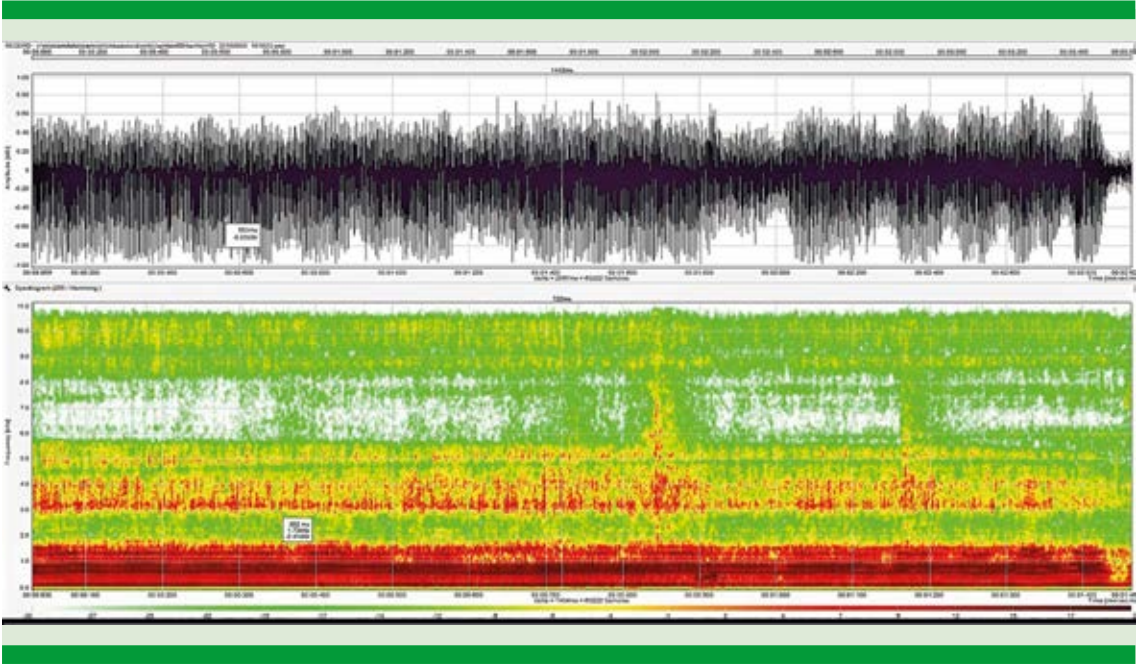


Figura 5. Armónicos.

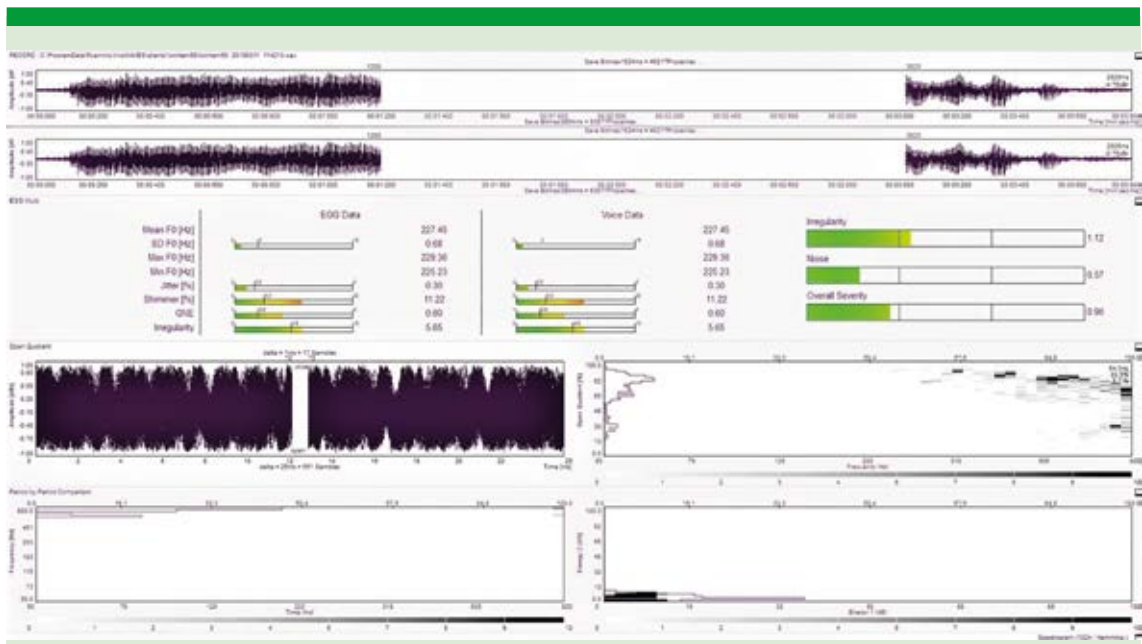


Figura 6. Electroglotografía.

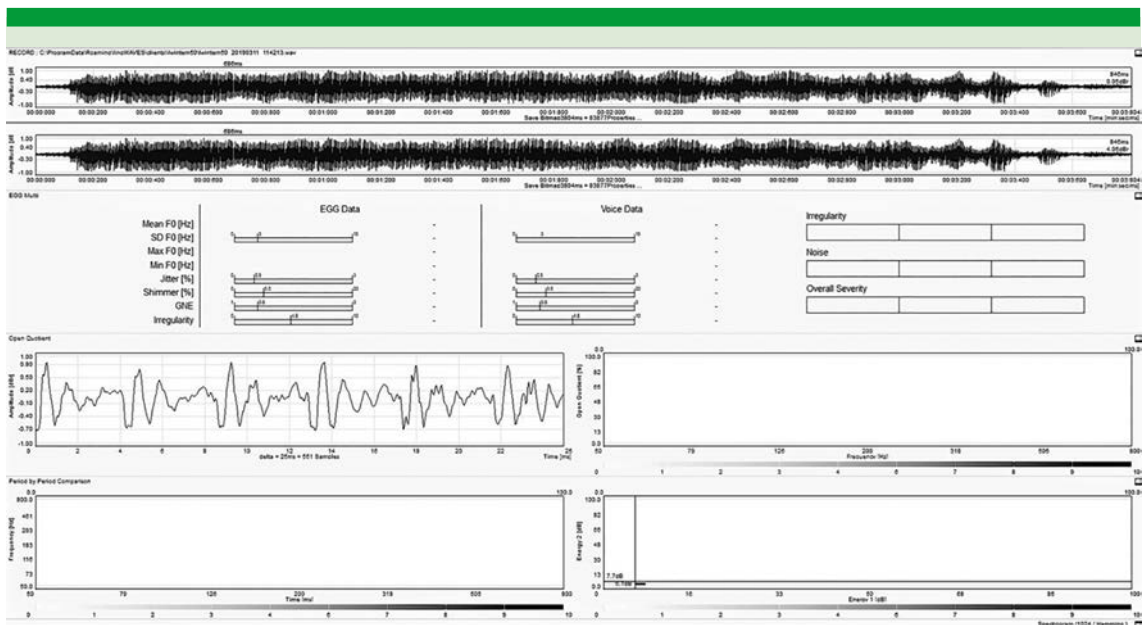


Figura 7. Electroglotografía. Coeficiente de apertura.



La radiografía de tórax con proyección antero-posterior no mostró alteraciones.

Se ingresó a programa de rehabilitación cardíaca por la disnea, con terapia cardiorrespiratoria. Tras concluir el ciclo de terapia institucional de seis meses, la paciente refirió mejoría subjetiva de 80% en comparación con la cita inicial. Se canalizó a psicología donde se encontró con actitud moderadamente ansiosa. Refirió sentirse triste por su enfermedad y limitada en su vida social. Se diagnosticó trastorno distímico secundario a enfermedad de base y recibió tratamiento con psicoterapia breve.

Rehabilitación foniátrica: inició terapia de voz, habla y deglución institucional, con medidas de deglución segura. Acudió a ocho sesiones de dos horas cada una en un periodo de tres meses; se trabajó con ejercicios de relajación con el objetivo de disminuir la distonía y disparos distónicos, sobre todo para los músculos faciales con enfoque a periorbitales y músculos cervicales anteriores con buen resultado ya que mostró disminución de la hipertoncidad, menor número de disparos distónicos y mejoría en los movimientos de lengua y velo del paladar. Su respiración era insuficiente y superficial. La paciente concluyó con mejoría en la calidad de la voz y en la coordinación respiratoria.

Tras concluir el ciclo de tres meses de terapia de voz, habla y deglución y la terapia cardiorrespiratoria de seis meses, en abril de 2019, bajo consentimiento informado, se aplicó toxina botulínica en la laringe (aunado a nasofaringo-laringoendoscopia) y en la frente, los párpados, la región nasogeniana y el mentón sin complicaciones (**Figura 8**). Se indicaron tres meses adicionales de terapia de voz, habla y deglución, con revaloraciones foniátricas mensuales.

Tres meses después de la aplicación de toxina botulínica y tras concluir nuevo ciclo de terapia,



Figura 8. Regiones de aplicación de toxina botulínica.

en julio de 2019, se realizó revaloración foniátrica. Refirió persistencia del problema de voz, con ligera mejoría de las características referidas, aunque hubo periodos irregulares en los que mejoraba la calidad de la emisión de voz de manera sustancial de duración variable (algunos días); continuaba con fenómenos espasmódicos de predominio vespertino, con el uso excesivo de la voz; mejoraba la voz con la realización de ejercicios de relajación y respiración aprendidos en la terapia. El problema de deglución disminuyó, con remisión de la sensación de cuerpo extraño y disminución de episodios de tos, ocurrían ocasionalmente (una vez por semana) con consistencia líquida; estaba integrada a la dieta familiar, con tiempos de alimentación de 30 minutos y con ganancia ponderal de 5 kg en dos meses. Negó infecciones de las vías respiratorias inferiores y episodios febriles. El problema de habla persistía con las mismas características,

con habla lenta y disprosódica. Los movimientos palpebrales disminuyeron sustancialmente, únicamente tuvo, durante dos semanas, espasmos palpebrales de forma diaria, sin factor desencadenante asociado con remisión espontánea.

La paciente decidió continuar la valoración neurológica en nuestra institución. Se agregó tizanidina (2 mg) a su esquema de medicamentos, junto a la carbamazepina (200 mg), se suspendió la olanzapina.

En la exploración física la voz se encontraba de tono agudo, el timbre continuaba áspero, pero con mejoría, con ligero aumento de la intensidad. El tiempo máximo fonatorio y espiratorio mejoraron tres segundos cada uno, los débitos también disminuyeron. El habla continuaba lenta y disprosódica. El blefarospasmo disminuyó en severidad y frecuencia, ambos a 1 en la escala de Jankovic.

Las valoraciones subsiguientes mostraron los siguientes resultados: *Dysphagia Handicap Index*: subescala física de 4 puntos (normal), subescala funcional 4 puntos (normal), subescala emocional 8 puntos (moderado), puntaje total de 16 puntos (normal). Evaluación fibroendoscópica de la deglución: consistencia pudding y néctar en cantidades de 5, 10 y 15 mL sin alteraciones. Análisis acústico de la voz: Jitter 0.12%, Shimmer 4.24%, frecuencia fundamental 187.75 Hz. Electroglotograma: onda glótica con menor irregularidad y aumento de la amplitud, cociente de apertura 81%, coeficiente de cierre 19%, espectrograma de banda ancha con primer y segundo formantes mejor definidos y de banda estrecha con primer y segundo armónicos. La telerradiografía de tórax no mostró datos relevantes.

DISCUSIÓN

El síndrome de Meige es un tipo de distonía craneal focal de causa desconocida caracterizado

por blefarospasmo y distonía oromandibular, asociado con movimientos complejos de los músculos inferiores de la cara; en este artículo se comunicó un caso de esa enfermedad, en el que sobresalían los movimientos palpebrales y la región superciliar de forma bilateral, sin la aparición de estos fenómenos en otras regiones, al menos hasta el momento de la última evaluación. El blefarospasmo es reportado como el hallazgo principal, incluso como único signo.¹ Se han reportado casos relacionados con la administración crónica de neurolepticos, como haloperidol, tioridazina,² levodopa y otros medicamentos, así como en el contexto de trastornos neurodegenerativos.³ Además, fármacos como los inhibidores de la monoamino-oxidasa, antiepilépticos, agentes adrenérgicos, el litio y antidepresivos tricíclicos pueden inducir tales trastornos del movimiento y distonías.^{4,5} Aun así, los casos espontáneos resultan ser los principales, con características que los diferencian de los eventos adquiridos, por ejemplo, en los primeros se reporta mayor incidencia en población femenina, con límites de edad de 50 a 70 años, focalización en la cara y los párpados, un curso crónico y mayor grado de discapacidad, como el caso que comunicamos; mientras que en los segundos los síntomas suelen ser de inicio súbito, generalizado, afectando porciones distales como las extremidades, de efectos temporales y buena respuesta a anticolinérgicos.² La paciente no refirió en ningún momento asociación de su tratamiento psiquiátrico con algún episodio distónico ni percibió exacerbación de sus síntomas.

La fisiopatología de las distonías craneales no está clara, pero su desencadenamiento tiene estrecha relación entre una predisposición genética y desencadenantes ambientales, entre estos, trastornos psiquiátricos, como la ansiedad y la depresión.⁶ Lee y colaboradores (2018), en una muestra de 101 pacientes en el estudio de factores precipitantes, encontraron que 42.6% de los pacientes experimentaron algún tipo de



evento estresante antes de la aparición de los síntomas. Esto incluyó eventos importantes de la vida, como divorcio (19.8%), problemas en el trabajo (13.9%), enfermedad de un miembro de la familia (2%), o propios agregados.⁷ Lo mismo ocurre con los factores agravantes entre los que nuevamente aparecen los eventos estresantes (46.5%), estímulos visuales brillantes (18.9%), síntomas de ojo seco (14.9%) o actividades de la vida diaria, como ver televisión (27.7%) o leer un libro (8.9%).⁸ La paciente del caso tenía episodios desencadenados por el estrés que eran controlados con ejercicios de relajación y respiración aprendidos, si bien no se observó un efecto sustancial en el blefarospasmo, el problema de voz remitía de manera importante. La evaluación psiquiátrica no reveló algún evento traumático esencial. Se ha reportado control de los síntomas por medio de maniobras o trucos que supuestamente alivian los síntomas de los pacientes; éstos incluyen dormir o relajarse, hablar, caminar, bostezar, cantar o tararear, jalar el párpado superior o pellizcar partes del cuerpo.⁹

Las manifestaciones clásicas originadas por la distonía craneal se distinguen por espasmos involuntarios de los músculos orbiculares del ojo, generalmente bilateral, lo que resulta en el cierre forzado de los párpados (blefarospasmo) y movimientos involuntarios en la porción inferior de la cara (distonía oromandibular), que caracteriza a la enfermedad, pero otros movimientos distónicos inferiores pueden añadirse al cuadro.¹⁰ Durante las etapas iniciales se observa mayor tasa de parpadeo y posteriormente, en el curso de la enfermedad, se producen espasmos incontrolables. Los espasmos pueden asumir una forma tónica, que puede durar segundos hasta varios minutos e incluir contracciones rítmicas que obstruyen la visión.¹¹ La severidad de la enfermedad puede medirse por medio de varias escalas, en este caso usamos la más común para este propósito, la escala de Jankovic, ya que comúnmente se utiliza para una evaluación

inicial y vigilancia de la respuesta al tratamiento, aunque existen otras que atienden a finalidades diferentes.⁶

Entre las alteraciones foniátricas, la disfonía espasmódica se ha asociado con el síndrome de Meige en 10% de los casos, siendo una distonía laríngea focal en la que aparecen espasmos en los músculos intrínsecos de la laringe durante la fonación,⁹ acompañados de alteraciones del timbre por alteraciones del cierre del esfínter velofaríngeo.¹² Puede ser aductora, abductora o mixta. Los problemas por aducción son los más comunes, representan 80 a 90%. Se caracterizan por una voz entrecortada y estrangulada, con frecuencia baja, debido a la alteración en el control motor del músculo tiroideo-aritenoideo. Por el contrario, los abductores se caracterizan por una voz abierta y aireada, con cambios en el control de la intensidad de la voz.¹³ En el caso comunicado la paciente mostró movimientos espasmódicos en aducción y abducción. Asimismo, entre las alteraciones de la deglución (reportadas en incluso 75% de pacientes con distonía oromandibular) están el derrame anterior y posterior, residuos bucales por mal selle labial, mala preparación del bolo y movimientos linguales y mandibulares inadecuados; retraso en el disparo deglutorio por incoordinación motora; paso a rinofaringe por disfunción del esfínter velofaríngeo; dificultad para movimientos hioideos y tiroideos, que conlleva a residuos en el vestíbulo, la vallécula y los senos piriformes, con aclaramiento deficiente. Todos estos datos se han confirmado por medio de estudios endoscópicos y videofluoroscopia.^{12,14}

Diagnóstico

El diagnóstico es clínico, basado en un algoritmo que tiene sensibilidad de 93% y especificidad de 90% que evalúa movimientos bilaterales, sincrónicos y estereotipados del músculo orbicular de los ojos, la presencia de un truco sensorial o un

aumento del parpadeo, que permite diferenciarlo del resto de las distonías focalizadas.¹⁵

Si bien es clínico, el resto de los estudios y pruebas a las que se tiene acceso permiten el establecimiento de un estudio a conciencia que no solo muestre los hallazgos de la exploración física, sino que proporcione una medición cuantitativa de su base neurológica y nos dirija a comprender mejor los mecanismos subyacentes y, por ende, el tratamiento más conveniente, susceptible de una individualización razonada.

Los otros aspectos motores tienen el potencial de afectar a los individuos de forma importante. Es probable que se necesiten herramientas que los tengan en cuenta para medir la gravedad y su efecto en la calidad de vida. Por ejemplo, en el caso de la evaluación de la discapacidad vocal, desde las escalas aplicables que permiten el establecimiento de una línea basal para una posterior valoración de la evolución, a la evaluación instrumentada que permite visualizar la movilidad laríngea. Las escalas de evaluación vocal perceptiva son de gran utilidad en el diagnóstico. Las más utilizadas en la actualidad son los GRABS. En un estudio realizado por Pedrero-Escalas y su grupo (2017) en pacientes con blefarospasmo y disfonía espasmódica, tras la aplicación de toxina botulínica, encontraron mejoría clínica tanto por el paciente por medio del *Voice Handicap Index* como por el evaluador a partir de los parámetros de GRABS.¹⁶

La característica paradigmática de la distonía en la electromiografía es la contracción entre músculos antagonistas en un intento de realizar un movimiento discreto. Sin embargo, esto no es factible en los músculos que controlan el párpado, el elevador palpebral, que no está disponible para la evaluación electromiográfica. Aún así, puede obtenerse información adicional registrando la actividad del orbicularis oculi con un par de electrodos colocados sobre la piel que

recubre el músculo en el párpado inferior.⁶ Otros autores han registrado desde el elevador palpebral con electrodos de aguja que muestran la reducción esperada de la inhibición recíproca.¹⁷ Si bien es una herramienta muy útil para mejorar la evaluación, en la práctica clínica diaria no siempre se utiliza. En este reporte de caso se realizó, pero con enfoque hacia el aparato fonarticulador para la evaluación de la actividad muscular, mediante diversas situaciones: actividad espontánea en reposo, actividad voluntaria y máximo esfuerzo. Esto permite informarnos acerca del mecanismo fisiopatológico del daño, ya sea por alteración del nervio (neurógeno) o del músculo (miógeno), con valor pronóstico como un indicador de mejoría funcional.¹⁸

Estudios de imagen

Se han realizado varios estudios de neurodiagnóstico en busca de una anomalía estructural, fisiológica o metabólica que expliquen los mecanismos subyacentes de este trastorno del movimiento. La alteración estructural principalmente asociada con blefarospasmo es a nivel del circuito de los ganglios basales,⁶ atrofia de corteza en regiones posteriores, cerebelo, lóbulo frontal, núcleo dentado y área perisilviana, también asimetría ventricular.^{9,19} Un estudio morfométrico mostró afectación de la corteza y el tracto corticonuclear encontrando disminución significativa del volumen de materia gris en la porción facial de la corteza motora primaria izquierda y del lóbulo cingulado anterior derecho de pacientes con blefarospasmo en comparación con voluntarios sanos.²⁰ Kerrison y colaboradores (2003), por medio de tomografía por emisión de positrones, informaron áreas corticales de aumento del metabolismo de la glucosa (circunvolución frontal inferior, circunvolución fusiforme del lóbulo temporal derecho y circunvolución del cíngulo anterior izquierdo). También encontraron mayor captación de glucosa en el caudado derecho y disminución en



la captación de glucosa en el hemisferio cerebeloso inferior izquierdo y el tálamo, además, un patrón de activación anormal en la corteza motora suplementaria.²¹ La resonancia magnética funcional detectó cambios regionales en el nivel de oxigenación en el putamen y en la corteza sensorial primaria y corteza motora suplementaria.⁴ Entre las causas de algunos de los hallazgos, se han propuesto malformaciones vasculares, lesiones quísticas y evento vascular cerebral.¹⁹ Esto último es importante para el caso actual porque la leucoaraiosis es un hallazgo común en pacientes con accidente cerebrovascular de sustancia blanca y se ha asociado estrechamente con el riesgo de demencia y es predictor de nuevos eventos vasculares.²² Además, se ha informado que incluso 25% de los cerebros con síndrome de Meige muestran cuerpos de Lewy. Si su existencia involucra áreas extendidas en el cerebro, puede dar lugar a la enfermedad de Parkinson, demencia y disfunción autonómica primaria.²³ Por tanto, valdrá la pena que la paciente tenga una vigilancia neurológica periódica con la indicación de estudios que puedan informarnos de la existencia de estos posibles hallazgos de neuroimagen.

Tratamiento

Las opciones de tratamientos son: medicamentos orales, toxina botulínica, rehabilitación y procedimientos avanzados. El tratamiento médico oral funciona en una cuarta parte de los pacientes;²⁴ los grupos farmacológicos principales son los anticolinérgicos, benzodiacepinas, levodopa, litio, baclofeno y tetrabenazina, con resultados variables, fallando al mostrar efectos prologados y en ocasiones con efectos adversos que limitan su prescripción.⁴ Las opciones quirúrgicas incluyen la denervación periférica y la escisión o sección de músculos con comorbilidad asociada, por lo que están reservadas para casos resistentes. La estimulación cerebral transcraneal ha demostrado reducción de la inhibición intracortical de corto

intervalo en ciertos músculos; tras estimulación repetitiva de baja frecuencia se reporta mejoría de la calificación subjetiva del paciente y del médico, así como de la curva de recuperación del reflejo del parpadeo; sin embargo, no resultan económicamente accesibles y son muy pocos los centros donde se disponen.^{25,26} La toxina botulínica se ha convertido en una poderosa opción terapéutica para aliviar los síntomas de las distonías y parece ser el tratamiento de elección contra el síndrome de Meige. El inicio del efecto clínico se nota en uno a tres días, con pico máximo de efecto entre dos y seis semanas después de la inyección. La duración del efecto varía hasta seis meses y se requieren inyecciones repetidas para mantener el efecto terapéutico.²⁷ Entre las posibles razones de una mala respuesta se incluyen el desarrollo de anticuerpos contra la toxina botulínica, mala técnica y apraxia para la apertura palpebral. Existe mayor probabilidad del desarrollo de anticuerpos si hay un intervalo corto entre las inyecciones, con dosis cada vez mayores con el tiempo y un inicio temprano de la terapia con inyección de toxina botulínica.²⁸

Las complicaciones más frecuentes del tratamiento con toxina botulínica están relacionadas con efectos locales agudos por quimio-denervación de zonas adyacentes. Para la inyección en los músculos orbitarios, el efecto local común es el debilitamiento del músculo elevador que produce ptosis y las consecuencias corneales del lagofthalmos como queratitis, ojos secos, visión borrosa y epífora de hipersecreción. Los efectos locales menos comunes incluyen entumecimiento facial, diplopía y ectropión.²⁹ Almedra y su grupo (2015), en un estudio con 27 sujetos con blefarospasmo, reportaron como efectos secundarios principales: ptosis (n = 6) y hematoma (n = 2).¹ Aparte de los efectos locales anteriores, se están observando algunos efectos distantes con frecuencia creciente. Éstos incluyen náuseas, prurito, síntomas similares a la gripe y disfagia; este último, sobre todo en

pacientes con distonía cervical, informado, incluso, en un tercio de los pacientes. La disfagia puede ocurrir de forma aguda (menos de cinco días después de la inyección de la toxina) o en un inicio posterior. Los efectos se deben a la difusión de la toxina en los tejidos y su unión a los sitios de reconocimiento en el exterior de las terminales nerviosas colinérgicas;³⁰ sin embargo, éste es un efecto adverso de alivio espontáneo. En un estudio se demostró una reducción significativa en la aparición de disfagia asociada con la inyección de toxina botulínica para tratar la tortícolis cuando la dosis era de 100 unidades o menos, en comparación con la dosis habitual de 150 unidades o más. Estos datos sugieren que el campo final de acción de denervación alrededor de los sitios de inyección puede depender de la dosis.³¹ En el caso comunicado, la paciente no refirió ningún efecto secundario tras la aplicación inmediata o posterior en sus revaloraciones, incluso mostró alivio subjetivo y objetivo de su problema de deglución.

La rehabilitación incluye fisioterapia, asesoramiento y terapia foniatría. La rehabilitación foniatría, en especial la enfocada a los músculos faciales, resalta en los pacientes en los que la afección se encuentra en sobremanera localizada. Ésta resulta esencial al enfocarse en los movimientos que los pacientes utilizan de forma intuitiva con el fin de disminuir los fenómenos espasmódicos orbitales y faciales consecuentes, al fomentarse el tono, fuerza y coordinación de los grupos musculares se promueve mayor control; si se recuerda la heterogeneidad del control motor y su alteración relacionada con el síndrome, puede comprenderse que esta serie de medidas produzcan mejoría, aunque también por qué en ocasiones no es así.

CONCLUSIONES

En cualquier paciente con una alteración del control motor, es necesaria la valoración y mane-

jo integral. Así, la contribución de cada experto en un área diferente de la salud será esencial, si se quiere llegar a la profunda comprensión del fenómeno subyacente. En el caso de esta paciente con síndrome de Meige se hace evidente la importancia del estudio clínico e instrumentado y el tratamiento foniatría que abarca la intervención farmacológica, rehabilitadora, cambio de hábitos y medidas de deglución segura.

REFERENCIAS

1. Almedra R, Velon AG, Veiga A, Silva MR. Blepharospasm and Meige syndrome: are there any differences? *Toxicon* 2015; 93: S2-S67. doi: 10.1016/j.toxicon.2014.11.007
2. Ananth J, Edelmann E, Dargatzis B. Meige's syndrome associated with neuroleptic treatment. *Am J Psychiatry* 1988; 145 (4): 513-5. doi: 10.1176/ajp.145.4.513
3. Tolosa E, Martí MJ. Blepharospasm-oromandibular dystonia syndrome (Meige's syndrome): clinical aspects. *Adv Neurol* 1988; 49: 73-84.
4. Defazio G, Hallett M, Jinnah HA, Conte A, Berardelli A. Blepharospasm 40 years later. *Mov Disord* 2017; 32 (4): 498-509. doi: 10.1002/mds.26934
5. Hallett M, Evinger C, Jankovic J, Stacy M. Update on blepharospasm: report from the BEBRF International Workshop. *Neurol* 2008; 71 (16): 1275-82. doi: 10.1212/01.wnl.0000327601.46315.85
6. Valls-Sole J, Defazio G. Blepharospasm: Update on epidemiology, clinical aspects, and pathophysiology. *Front Neurol* 2016; 7: 45. doi: 10.3389/fneur.2016.00045
7. Lee JM, Baek JS, Choi HS, Kim SJ, Jang JW. Clinical features of benign essential blepharospasm in Korean patients. *Korean J Ophthalmol* 2018; 32 (5): 339-343. doi: 10.3341/kjo.2018.0038
8. Jahngir MU, Patel BC. Meige syndrome. *StatPearls [Internet]* 2019. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK513358/>
9. Jankovic J, Ford J. Blepharospasm and orofacial-cervical dystonia: Clinical and pharmacological findings in 100 patients. *Ann Neurol* 1983; 13 (4): 402-411. doi: 10.1002/ana.410130406
10. Titi-Lartey O, Patel BC. Benign essential blepharospasm. *StatPearls [Internet]*. 2020. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK560833/>
11. LeDoux MS. Meige syndrome: What's in a name? *Parkinsonism Relat Disord* 2009; 15 (7): 483-9. doi: 10.1016/j.parkreldis.2009.04.006
12. Cersósimo MG, Juri S, Suárez de Chandler S, Clerici R, Micheli FE. Swallowing disorders in patients with blepharospasm. *Medicina (B Aires)* 2005; 65 (2): 117-20.



13. Verheyden J, Blitzer A. Laryngeal dystonia. Dystonia: etiology, clinical features, and treatment. Philadelphia: Lippincott Williams and Wilkins; 2004; 175-83.10.
14. Kakigi R, Shibasaki H, Kuroda Y, Shin T, Maeyama T, Oono S. Meige's syndrome associated with spasmodic dysphagia. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1983; 46 (6): 589-90. doi: 10.1136/jnnp.46.6.589
15. Hwang, CJ, Eftekhari K. Benign essential blepharospasm. *Internat Ophthalmol Clin* 2018; 58 (1): 11-24. doi:10.1097/iio.0000000000000207
16. Pedrero-Escalas MF, García-López I, Santiago-Pérez S, Vivancos F, Gavilán J. Clinical experience with patients with spasmodic dysphonia and primary Meige syndrome. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2019; 70 (1):1-5. doi: 10.1016/j.otorri.2017.11.007
17. Aramideh M, Bour LJ, Koelman JH, Speelman JD, Ongerboer de Visser BW. Abnormal eye movements in blepharospasm and involuntary levator palpebrae inhibition. Clinical and pathophysiological considerations. *Brain* 1994; 117 (Pt 6): 1457-74. doi: 10.1093/brain/117.6.1457
18. Cobeta I, Núñez F, Fernández S. Patología de la voz. 1ª ed. Barcelona, España. Marge Médica Books, 2013.
19. Khooshnoodi MA, Factor SA, Jinnah HA. Secondary blepharospasm associated with structural lesions of the brain. *J Neurol Sci* 2013; 331: 98-101. doi: 10.1016/j.jns.2013.05.022
20. Horovitz SG, Ford A, Najee-Ullah MA, Ostuni JL, Hallett M. Anatomical correlates of blepharospasm. *Transl Neurodegener* 2012; 1: 12. doi: 10.1186/2047-9158-1-12
21. Kerrison JB, Lancaster JL, Zamarrípa FE, Richardson LA, Morrison JC, Holck DE. Positron emission tomography scanning in essential blepharospasm. *Am J Ophthalmol* 2003; 136: 846-52. doi:10.1016/S0002-9394(03)00895-X
22. Smith EE. Leukoaraiosis and stroke. *Stroke* 2010; 41 (10 Suppl): S139-43. doi: 10.1161/STROKEAHA.110.596056
23. Chan LK, Ho HY, Yu CS. Dementia with Lewy bodies in Meige syndrome. *Innov Clin Neurosci* 2012; 9 (7-8): 39-41.
24. Jinnah HA, Factor SA. Diagnosis and treatment of dystonia. *Neurol Clin* 2015; 33: 77-100. doi: 10.1016/j.ncl.2014.09.002
25. Markaki E, Kefalopoulou Z, Georgiopoulos M, Paschali A, Constantoyannis C. Meige's syndrome: A cranial dystonia treated with bilateral pallidal deep brain stimulation. *Clin Neurol Neurosurg* 2010; 112 (4): 344-6. doi: 10.1016/j.clineuro.2009.12.005
26. Houser M, Waltz T. Meige syndrome and pallidal deep brain stimulation. *Mov Disord* 2005; 20 (9): 1203-5. doi: 10.1002/mds.20522
27. Sabesan T. Meige syndrome: a rare form of cranial dystonia that was treated successfully with botulinum toxin. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2008; 46 (7): 588-90. doi: 10.1016/j.bjoms.2008.02.002
28. Ababneh OH, Cetinkaya A, Kulwin DR. Long-term efficacy and safety of botulinum toxin A injections to treat blepharospasm and hemifacial spasm. *Clin. Experiment Ophthalmol* 2014; 42 (3): 254-61.
29. Kwek ABE, Tan EK, Luman W. Dysphagia as a side effect of botulinum toxin injection. *Med J Malaysia* 2004; 59 (4): 544-6.
30. Dutton JJ. Botulinum-A toxin in the treatment of cranio-cervical muscle spasms: short- and long-term, local and systemic effects. *Surv Ophthalmol* 1996; 41 (1): 51-65. doi: 10.1016/s0039-6257(97)81995-9
31. Borodic GE, Ferrante R, Pearce B, Smith K. Histologic assessment of dose-related diffusion and muscle fiber response after therapeutic botulinum A toxin injections. *Mov Disord* 1994; 88 (9): 31-39. doi: 10.1002/mds.870090106

Normas de publicación

INSTRUCCIONES A LOS AUTORES SOBRE LA FORMA DE PRESENTAR SUS MANUSCRITOS

Anales de Otorrinolaringología Mexicana es la revista médica de difusión oficial de la Sociedad Mexicana de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello A.C. La edición electrónica es publicada y distribuida por Nieto Editores; se puede descargar en versión española en la dirección <http://www.smorlccc.org.mx/revistas.html>, <http://www.nietoeditores.com.mx> y en www.otorrino.org.mx. Todas las contribuciones originales serán evaluadas antes de ser aceptadas por revisores expertos designados por los Editores.

Ésta publica cuatro números por año e incluye artículos que cubren todas las áreas de la otorrinolaringología y cirugía de cabeza y cuello y especialidades afines. Artículos de investigación médica que pueden ser publicados como artículos originales, editoriales, reportes preliminares, metanálisis, casos clínicos con aportaciones nuevas o de interés particular, artículos de revisión, educación médica, cartas al editor, originales e inéditos.

Todos los manuscritos se enviarán por el sistema de envío electrónico, dirigidos a la Directora-Editora Dra. Luz Arcelia Campos Navarro al correo electrónico: lucycampos@prodigy.net.mx y a revista.aom@smorlccc.org; los manuscritos son evaluados por el comité editorial y el sistema de revisión por pares.

Los manuscritos deben ir 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. Todos los autores de las aportaciones originales deberán confirmar la **aceptación de la cesión de estos derechos y declaración de intereses** al enviar el manuscrito a través del sistema de gestión en línea.

Los manuscritos aceptados serán propiedad de la Revista y no podrán ser publicados en parte o completos sin la autorización por escrito de *Anales de Otorrinolaringología Mexicana*. Por el simple hecho de que el (los) autor (es) someta el texto de su trabajo a consideración para su publicación en *Anales de Otorrinolaringología Mexicana* acepta todas las modificaciones de tipo editorial que los Editores de la revista juzguen necesarias. La responsabilidad de las ideas expresadas en los artículos, así como de la posible infracción a los derechos de autor de terceros, recae exclusivamente en el (los) autor (es) que firma (n) el trabajo.

TIPO DE ARTÍCULOS

Artículos de investigación original

Éste es un estudio de investigación no publicado (clínico o experimental), de interés en el área médica o quirúrgica que describe los resultados originales, con información y aportaciones evaluadas críticamente. Éste debe presentarse con el siguiente orden para su evaluación: Página de título, Resumen, Introducción, Material y método, Resultados, Discusión, Conclusiones, Agradecimientos, Referencias, tablas y figuras. El manuscrito no debe exceder en su totalidad de 20 cuartillas, 7 figuras o tablas y máximo 30 referencias.

Informes preliminares

Son informes breves y definidos que presentan hallazgos novedosos o relevantes, cuya estructura a presentar es similar a la de artículos originales, resaltando la información relevante, nueva o de interés de forma concisa con una explicación del evento incluida. Límite de palabras: 2,600, 3 tablas o figuras y máximo 20 referencias.

Artículos de revisión

Su objetivo primordial es emitir información actualizada sobre un tema específico por un experto en el campo. Suele ser por invitación de los editores. Los autores no invitados pueden presentar manuscritos, donde es recomendable se anexe la revisión acompañada de una lista de sus propios trabajos publicados en el campo que confirma su experiencia en el área. Debe ser conciso e incluir avances científicos, controversias en el campo a tratar, puntos de vista del experto siempre y cuando se encuentren fundamentados. Debe contener un máximo de 7,000 palabras.

Cartas al editor

Deben estructurar: texto, referencias, reconocimientos. Deben tener un máximo de 500 palabras y 5 referencias.

Casos clínicos

Se publican artículos con temas específicos que pudiesen ser de ayuda a los clínicos en la toma de decisiones clínicas o de investigación. Debe presentarse: Título, Nombre(s) completo(s) del autor(es), Resumen en español e inglés, palabras clave. Resumen clínico, subtemas y su desarrollo o análisis crítico, Conclusión, Referencias. Los fármacos, drogas y sustancias químicas deben denominarse por su nombre genérico, la posología y vías de administración se indicarán conforme la nomenclatura internacional.

PREPARACIÓN DEL MANUSCRITO

Estructure el manuscrito en este orden: página del título, resumen en español e inglés, texto, agradecimientos, referencias, tablas, figuras y leyendas de figuras.

Requisitos técnicos

1. Doble espacio en todo el manuscrito en formato Word, letra times new roman de 12 puntos. 2. Iniciar cada sección del manuscrito en página aparte. 3. Seguir la siguiente secuencia: página del título (inicial), resumen en español e inglés incluidas las palabras clave; texto, agradecimientos, referencias, cuadros (cada uno en una página por separado), pies o epígrafes de las ilustraciones (figuras). 4. Las ilustraciones (fotografías sin montar) deben ser mayores a 360 ppm (alta definición) en formato TIF o JPG. Éstas **NO** deben insertarse en el archivo de texto.

Secciones

- Título.** Debe incluir el título exacto, en español e inglés; los nombres completos del o los autores y sus afiliaciones institucionales. **Los editores de la revista Anales de Otorrinolaringología Mexicana se reservan el derecho de modificar el título cuando se considere apropiado.** Incluir el (la) autor (a) de correspondencia con nombre, dirección, teléfono y correo electrónico. Si se presentó en alguna reunión científica, deberá expresarse en forma completa el nombre de la reunión, la fecha y el lugar en que se realizó. Declaraciones de descargo de responsabilidad o fuente (s) del apoyo recibido en forma de subvenciones, equipo, medicamentos, si las hay.
- Resumen.** Incluir resumen estructurado máximo de 250 palabras. Indicar objetivo, tipo de estudio, material y métodos, resultados con los hallazgos principales y conclusiones clave, seguido de cuatro a seis palabras clave (<http://www.nlm.nih.gov/mesh/>). No debe contener citas bibliográficas. El resumen se acompañará con una versión en idioma inglés, idéntico al de la versión en español.
- Introducción.** Expresar el propósito del artículo y resume el fundamento lógico del estudio u observación. Mencione las referencias estrictamente pertinentes.
- Material y método.** Describa claramente qué tipo de estudio es, la población de estudio y la forma como se seleccionaron los sujetos observados o de experimentación (pacientes o animales de laboratorio, incluidos los controles). Debe especificar el periodo en el que se hizo el estudio. Identifique las características importantes de los sujetos. Los métodos, aparatos (nombre y dirección del fabricante entre paréntesis), intervenciones y procedimientos con detalles suficientes para que otros investigadores puedan reproducir los resultados. Proporcione referencias de métodos utilizados, medicamentos o equipos y los métodos estadísticos. Consideraciones éticas.
- Aspectos éticos.** Cuando se informe sobre experimentos en seres humanos, señale si los procedimientos que se siguieron estuvieron de acuerdo con las normas éticas del comité (institucional o regional) que supervisa la experimentación en seres humanos y con la Declaración de Helsinki de 1975, enmendada en 1983. No use el nombre, las iniciales, ni el número de clave hospitalaria de los pacientes, especialmente en el material ilustrativo. Cuando dé a conocer experimentos con animales, mencione si se cumplieron las normas de institución o cualquier ley nacional sobre el cuidado y uso de los animales de laboratorio.
- Estadística.** Describa los métodos estadísticos con detalles suficientes para que el lector versado en el tema que tenga

acceso a los datos originales pueda verificar los resultados presentados. Cuando sea posible, cuantifique los hallazgos y preséntelos con indicadores apropiados de error o incertidumbre de la medición (por ejemplo, intervalos de confianza). No dependa exclusivamente de las pruebas de comprobación de hipótesis estadísticas, tales como el uso de los valores de p, que no transmiten información cuantitativa importante. Analice la elegibilidad de los sujetos de experimentación. Dé los detalles del proceso de aleatorización. Describa la metodología utilizada para enmascarar las observaciones (método ciego). Informe sobre las complicaciones del tratamiento. Especifique el número de observaciones. Señale las pérdidas de sujetos de observación (por ejemplo, las personas que abandonan un ensayo clínico).

7. **Resultados.** Presente los resultados en sucesión lógica dentro del texto, cuadros e ilustraciones. No repita en el texto datos de cuadros o ilustraciones; enfátice o resuma tan solo las observaciones importantes.
8. **Discusión.** Haga hincapié en los aspectos nuevos e importantes del estudio y en las conclusiones que se derivan de ellos. No repita información. Explique el significado de los resultados y sus limitaciones, incluyendo sus consecuencias para investigaciones futuras. Relacione las observaciones con otros estudios pertinentes. Establezca el nexo de las conclusiones con los objetivos de estudio evitando hacer afirmaciones generales y extraer conclusiones que no estén completamente respaldadas por los datos. Proponga nuevas hipótesis cuando haya justificación para ello, pero identificándolas claramente como tales; las recomendaciones, cuando sea apropiado.
9. **Conclusiones.** Resaltar los puntos importantes obtenidos del estudio o investigación.
10. **Agradecimientos.** Si se considera pertinente.
11. **Referencias.** Éstas son responsabilidad de los autores. Las referencias deberán enumerarse con números arábigos consecutivamente siguiendo el orden en que se mencionan por primera vez en el texto. El número aparecerá entre paréntesis. Las referencias citadas solamente en cuadros o ilustraciones se numerarán siguiendo una secuencia establecida por la primera mención que se haga en el texto de ese cuadro o esa figura en particular.

Use el formato de los Requisitos uniformes estilo de Vancouver que utiliza la U. S. National Library of Medicine en el Index Medicus. Nótese: Número de referencia sin guión, no comas ni puntos excepto para separar con comas cada autor. Con puntos, solo se separa autores y título. Solo minúsculas excepto letra inicial tras el punto y letra inicial de nombres propios. Sin punto final después de la cita.

Ejemplos de citas en revistas periódicas

- **Articular ordinario de revista:** 1. Vega KJ, Pina J, Krevsky B. Heart transplantation is associated with an increased risk for pancreaticobiliary disease. *Ann Intern Med* 1996;124:980-3. Más de seis autores: 1. Parkin DM, Clayton D, Black RJ, Masuyer E, Friedl HP, Ivanov E, et al. Childhood leukaemia in Europe after Chernobyl: 5 year followup. *Br J Cancer* 1996;73:1006-12.
- **Autor corporativo:** 1. The Cardiac Society of Australia and New Zealand. Clinical exercise stress testing. Safety and performance guidelines. *Med J Aust* 1996; 164:282-4 • No se indica el nombre del autor: 1. Cancer in South Africa (editorial). *S. Afr Med J* 1994;84:15 • Suplemento de un número 1. Payne DK, Sullivan MD, Massie MJ. Women's psychological reactions to breast cancer. *Semin Oncol* 1996;23(1 supl 2):89-97.
- **Parte de un número** 1. Poole GH, Mills SM. One hundred consecutive cases of flap lacerations of the leg in ageing patients. *N Z Med J* 1994;107 (986 Pt 1):377-8.
- **Indicación del tipo de artículo, según corresponda** 1. Enzensberger W, Fischer PA. Metronome in Parkinson's disease [carta]. *Lancet* 1996;347: 1337.

Libros y monografías

- **Individuos como autores** 1. Rigsven MK, Bond D. Gerontology and leadership skills for nurses. 2nd ed. Albany (NY): Delmar Publishers; 1996.
- **Directores (editores) o compiladores como autores** 1. Norman JJ, Redfern SJ, editores. Mental health care for elderly people. New York: Churchill Livingstone; 1996.
- **Una organización como autor y editor** 1. Institute of Medicine (US). Looking at the future of the Medicaid program. Washington (DC): The Institute; 1992.
- **Capítulo de libro** 1. Phillips SJ, Whisnant JP. Hypertension and stroke. En: Laragh JH, Brenner BM, editores. Hypertension: patho-

physiology, diagnosis and management. 2nd ed. New York: Raven Press; 1995:465-78.

- **Actas de conferencias o congresos** 1. Kimura J, Shibasaki H, editores. Recent advances in clinical neurophysiology. Proceedings of the 10th International Congress of EMG and Clinical Neurophysiology; 1995 Oct15-19; Kyoto, Japan. Amsterdam: Elsevier; 1996.
- **Artículo publicado en actas de conferencias o congresos** 1. Bengtsson S, Solheim BG. Enforcement of data protection, privacy and security in medical informatics. En: Lun KC, Degoulet P, Piemme TE, Rienhoff O, editores MEDINFO 92. Proceedings of the 7th World Congress on Medical Informatics; 1992 Sep 6-10; Geneva, Switzerland, Amsterdam: NorthHolland; 1992:1561-5.
- **Tesis** 1. Kaplan SJ. Post-hospital home health care: the elderly's access and utilization [dissertation]. St. Louis (MO): Washington Univ.; 1995. Otros trabajos publicitarios.
- **Artículo de periódico** 1. Lee G. Hospitalizations tied to ozone pollution: study estimates 50,000 admissions annually. *The Washington Post* 1996 Jun 21; Sect. A:3 (col 5).
- **Diccionario y referencias similares** 1. Stedman's medical dictionary, 26th . ed. Baltimore: Williams & Wilkins; 1995. Apraxia; p. 119-20.
- **Obras clásicas** 1. The Winter's Tale: act 5, scene 1, lines 13-16. The complete works of Williams Shakespeare. London: Rex; 1973.
- **Trabajos inéditos** 1. Leshner AI. Molecular mechanism of cocaine addiction. *N Engl J Med*. En prensa 1997.
- 12. **Cuadros o tablas.** Numérelas consecutivamente con números arábigos, siguiendo el orden en que se citan por primera vez en el texto y asigne un título breve a cada uno. Las explicaciones irán como notas al pie y no en el encabezado. Explique todas las abreviaturas no usuales que se utilizaron en cada cuadro. Identifique las medidas estadísticas de variación, como la desviación estándar y el error estándar de la medida. No trace líneas horizontales ni verticales en el interior de los cuadros. Cerciórese de que cada cuadro sea citado en el texto. Los cuadros o tablas deben enviarse en un formato editable (word o excel) y no deberán insertarse en el texto como imagen.

13. **Ilustraciones (Figuras).** Deberán ser a color y numerarse con números arábigos. *Anales de Otorrinolaringología Mexicana* no se responsabiliza de pérdida de las ilustraciones y no serán regresadas al autor excepto si el trabajo no se publicase. No se aceptarán los letreros trazados a mano. Las letras, números, y símbolos deberán ser claros, y uniformes en todas las ilustraciones y de tamaño suficiente para que sigan siendo legibles. Los títulos y explicaciones detalladas se incluirán en los pies o epígrafes, no sobre las propias ilustraciones. **NO** debe repetirse la misma información en cuadros y figuras. Se optará por publicar el o la que muestre la información de manera más completa.

Si se utilizan fotografías de personas, éstas no deberán ser identificables o de lo contrario, habrá que anexar un permiso por escrito para poder usarlas (véase protección de los derechos del paciente a la privacidad). Si una figura ya fue publicada, se dará a conocer la fuente original y se presentará la autorización por escrito que el titular de los derechos de autor (*copyright*) concede para reproducirla. Este permiso es necesario, independientemente de quien sea el autor o la editorial, a excepción de los documentos del dominio público.

Unidades de medida. Las medidas de longitud, talla, peso y volumen se expresarán en unidades del sistema métrico decimal (metro, kilogramo, litro) o en sus múltiplos y submúltiplos. Las temperaturas deberán registrarse en grados Celsius. Los valores de presión arterial se indicarán en milímetros de mercurio. Todos los valores hepáticos y de química clínica se presentarán en unidades del sistema métrico decimal y de acuerdo con el Sistema Internacional de Unidades (SI).

Abreviaturas y símbolos. Utilice solo abreviaturas ordinarias (estándar). Evite abreviaturas en el título y resumen. Cuando se use por primera vez una abreviatura, ésta irá precedida del término completo (a menos que se trate de una unidad de medida común).

REFERENCIAS

International Committee of Medical Journal Editors. Uniform requirements for manuscripts submitted to biomedical journals. *N Engl J Med* 1997; 336: 309-15 Comité Internacional de Editores de Revistas Médicas. Requisitos uniformes para manuscritos destinados a revistas biomédicas. *An ORL Mex* 1998 volumen 43, número 2. Todo el texto de estas Instrucciones es una adaptación condensada del artículo citado; los ejemplos mencionados son los mismos usados en dicha cita.



Instrucciones para los autores

CESIÓN DE DERECHOS DE AUTOR

Los abajo firmantes estamos conformes con lo mencionado en los incisos previos, como en el tipo de crédito asignado en este artículo:

• TÍTULO DEL ARTÍCULO

• NOMBRE COMPLETO DEL AUTOR O AUTORES

• LOS AUTORES CERTIFICAN QUE SE TRATA DE UN TRABAJO ORIGINAL, QUE NO HA SIDO PREVIAMENTE PUBLICADO NI ENVIADO PARA SU PUBLICACIÓN A OTRA REVISTA. MANIFIESTAN QUE NO EXISTE CONFLICTO DE INTERESES CON OTRAS INSTANCIAS.

• TAMBIÉN ACEPTAN QUE, EN CASO DE SER ACEPTADO PARA PUBLICACIÓN EN ANALES DE OTORRINOLARINGOLOGÍA MEXICANA, LOS DERECHOS DE AUTOR SERÁN TRANSFERIDOS A LA REVISTA.

• NOMBRE Y FIRMA DE TODOS LOS AUTORES:

NOMBRE

FIRMA

<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>

• VISTO BUENO (NOMBRE Y FIRMA) DE AUTORIZACIÓN DE LA INSTITUCIÓN DONDE SE REALIZÓ EL TRABAJO:

NOMBRE

FIRMA

<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>
<hr/>	<hr/>

LUGAR: _____ FECHA: _____