

# ORL

Volumen 14 • Número 4 • 2023

OTORRINOLARINGOLOGÍA  
DOCUMENTACIÓN Y METODOLOGÍA DE INVESTIGACIÓN



eISSN: 2444-7986  
DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.2023144>  
<https://revistas.usal.es/index.php/2444-7986/>



Ediciones Universidad  
**Salamanca**

## EQUIPO DE REDACCIÓN

### DIRECTOR

---

José Luis PARDAL REFOYO, SACYL, Hospital Universitario de Salamanca, España

### SECRETARIA DE DIRECCIÓN

---

Tránsito FERRERAS FERNÁNDEZ, Universidad de Salamanca, España

### CONSEJO DE REDACCIÓN

---

José Ignacio BENITO OREJAS, SACYL, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, España  
Jaime SANTOS PÉREZ, SACYL, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, España  
Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA, SACYL, Hospital Universitario de Burgos, España  
Carmelo MORALES ANGULO, Universidad de Cantabria, España  
Eduardo MARTÍN SANZ, Universidad Europea de Madrid, España  
Helena MARTÍN RODERO, Universidad de Salamanca, España  
Pedro DIAZ DE CERIO CANDUELA, Hospital San Pedro de Logroño, España  
Jorge CHAMORRO SÁNCHEZ, Universidad Pontificia de Salamanca, España  
Ángel BATUECAS CALETRÍO, Universidad de Salamanca, España  
Luis Ángel VALLEJO VALDEZATE, Universidad de Valladolid, España  
Beatriz PARDAL PELÁEZ, Universidad de Salamanca, España

### CONSEJO ASESOR

---

Juan José AILAGAS DE LAS HERAS, SACYL, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, España  
José Luis LLORENTE PENDÁS, Universidad de Oviedo, España  
Gonzalo MARTÍN HERNÁNDEZ, SACYL, Complejo Asistencial de Ávila, España  
Agustín MAYO ÍSCAR, Universidad de Valladolid, España  
Darío MORAIS PÉREZ, SACYL, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, España  
Andrés MUNYO ESTEFAN, Universidad de la República, Uruguay  
Ángel MUÑOZ HERRERA, Universidad de Salamanca, España  
Carlos OCHOA SANGRADOR, SACYL, Complejo Asistencial de Zamora, España  
Leonardo Elías ORDÓÑEZ ORDÓÑEZ, Universidad Militar Nueva Granada, Colombia  
Nicolás PÉREZ FERNÁNDEZ, Universidad de Navarra, España  
Ángel RAMOS MACÍAS, Universidad de Las Palmas de Gran Canaria, España  
Santiago SANTA CRUZ RUIZ, Universidad de Salamanca, España  
Mariela Claudia TORRENTE AVENDAÑO, Universidad de Chile, Chile  
María Jesús VELASCO GARCÍA, SACYL, Complejo Asistencial de Ávila, España  
Luis LASSALETTA ATIENZA, Universidad Autónoma de Madrid, España  
Raimundo GUTIÉRREZ FONSECA, Hospital Rey Juan Carlos de Móstoles, España  
Ricardo BENTO, Universidade de São Paulo, Brazil  
Sergio CARMONA, Instituto de Neurociencias de Buenos Aires, Argentina  
Jorge CARO LETELIER, Pontificia Universidad Católica de Chile, Chile  
Roy CASIANO, University of Miami, United States  
Rogelio CHARLONE GRANUCCI, Hospital Maciel de Montevideo, Uruguay  
Gabriel CHARLONE GRANUCCI, Universidad de la Republica, Uruguay  
Juan Armando CHIOSSONE KERDEL, Universidad Central de Venezuela  
Leopoldo CORDERO, Centro de Investigaciones Otoaudiológicas, Argentina  
Gustavo Ramón COSTAS RIVIEZZO, Universidad de la República, Uruguay  
Marcelo D' AGOSTINO, Pan American Health Organization, Washington, United States  
Ricardo D' ALBORA, Universidad de la República, Uruguay  
Paul DELANO REYES, Universidad de Chile, Chile  
José GRANELL NAVARRO, Hospital Universitario Rey Juan Carlos de Móstoles, España  
David NOVILLO ORTIZ, Pan American Health Organization, Washington, United States

## ÍNDICE

---

### ARTÍCULOS ORIGINALES

---

Uso de videos como material complementario en la enseñanza de la Otorrinolaringología  
José Manuel MORALES-PUEBLA; Helena GÓMEZ-CAMACHO; Javier GAVILÁN; Luis LASSALETTA 235

---

Estudio retrospectivo de la incidencia de los abscesos periamigdalinos  
y parafaríngeos en el periodo 2000-2021  
Juan LOSADA-CAMPÁ; José Ignacio BENITO-OREJAS; María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ;  
Mariana GONZÁLEZ-SOSTO; María Fe MUÑOZ-MORENO; Jaime SANTOS-PÉREZ 247

---

Evolución de la producción científica de los trabajos sobre dehiscencia del canal semicircular posterior  
Ana Isabel CISNEROS-GIMENO; Alberto GARCÍA-BARRIOS; Guillermo ESCUER-ALBERO;  
Jesús OBON-NOGUÉS; Jaime WHYTE-OROZCO 263

---

### ARTÍCULOS DE REVISIÓN

---

Orbitopatía tiroidea. Puntos clave para el diagnóstico y tratamiento  
Victoria MARQUÉS-FERNÁNDEZ; Alicia GALINDO-FERREIRO;  
Jose Maria PALACIOS-MURES; Maria del Mar VILLACORTA-MARTÍN 277

---

Manifestaciones otorrinolaringológicas del Síndrome VEXAS. Revisión sistemática  
Lucía MARTÍNEZ-DÍAZ; Carmelo MORALES-ANGULO 289

---

### CARTA AL DIRECTOR

---

Tadalafilo como opción terapéutica en la enfermedad de Ménière  
Ricardo D'ALBORA; Jorge BELLO; María Julia MÓNACO 311

---

## TABLE OF CONTENTS

---

### ORIGINAL ARTICLES

---

Otorhinolaryngology image as supplementary teaching material  
José Manuel MORALES-PUEBLA; Helena GÓMEZ-CAMACHO; Javier GAVILÁN; Luis LASSALETTA 235

---

Retrospective study of the incidence of peritonsillar and parapharyngeal abscesses  
in the period 2000–2021  
Juan LOSADA-CAMPA; José Ignacio BENITO-OREJAS; María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ;  
Mariana GONZÁLEZ-SOSTO; María Fe MUÑOZ-MORENO; Jaime SANTOS-PÉREZ 247

---

Evolution of the scientific production generated on posterior semicircular canal dehiscence  
Ana Isabel CISNEROS-GIMENO; Alberto GARCÍA-BARRIOS; Guillermo ESCUER-ALBERO;  
Jesús OBON-NOGUÉS; Jaime WHYTE-OROZCO 263

---

### REVIEWS

---

Thyroid orbitopathy. Tricks for diagnosis and treatment  
Victoria MARQUÉS-FERNÁNDEZ; Alicia GALINDO-FERREIRO;  
Jose Maria PALACIOS-MURES; Maria del Mar VILLACORTA-MARTÍN 277

---

Ear, nose, and throat manifestations of VEXAS Syndrome. Systematic review  
Lucía MARTÍNEZ-DÍAZ; Carmelo MORALES-ANGULO 289

---

### LETTER TO THE DIRECTOR

---

Tadalafil could be a therapeutic option in Ménière's disease  
Ricardo D'ALBORA; Jorge BELLO; María Julia MÓNACO 311

---

## USO DE VIDEOS COMO MATERIAL COMPLEMENTARIO EN LA ENSEÑANZA DE LA OTORRINOLARINGOLOGÍA

### *Otorrhynology image as supplementary teaching material*

José Manuel MORALES-PUEBLA <sup>1,2</sup>; Helena GÓMEZ-CAMACHO <sup>2</sup>;  
Javier GAVILÁN <sup>1,2</sup>; Luis LASSALETTA <sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Universidad Autónoma de Madrid. Facultad de Medicina. Madrid. España.

<sup>2</sup>Hospital Universitario La Paz. Servicio de Otorrinolaringología. Madrid. España.

Correspondencia: [josemanuelmoralespuebla@gmail.com](mailto:josemanuelmoralespuebla@gmail.com)

Fecha de recepción: 9 de marzo de 2023

Fecha de aceptación: 26 de marzo de 2023

Fecha de publicación: 11 de abril de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 18 de diciembre de 2023

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses

Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes

Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO)

Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional

Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

**RESUMEN:** Introducción y objetivo: Los videos, como material didáctico complementario, pueden reemplazar parte de las horas de docencia y ayudar en la adquisición de conocimientos en Otorrinolaringología. Para ello se pretende analizar el impacto de la visualización de 4 videos en el resultado de 6 preguntas específicas del examen teórico de la asignatura y evaluar la percepción de estos videos. Método: Estudio analítico cuasi experimental transversal realizado en 213 estudiantes de Otorrinolaringología de la Universidad Autónoma de Madrid divididos en 2 grupos: grupo intervención y grupo control. Las diferencias en el rendimiento en las 6 preguntas entre ambos grupos se determinaron mediante la prueba  $\chi^2$  o el test exacto de Fisher, con un valor de significación  $p < 0.05$ . Además, para evaluar la percepción de los estudiantes se revisaron las opiniones registradas en los cuadernos de rotación hospitalaria. Resultados: Los videos tuvieron 883 visualizaciones al momento del análisis de los datos y la mayoría de las opiniones fueron positivas (94.87%). Se observaron diferencias significativas ( $p < 0.01$ ) en el resultado de los estudiantes en dos preguntas: "oído 1" (27.78% de aciertos en el grupo intervención vs. 7.50% en el grupo control) y

“cuello 2” (38.89% vs. 81.80%). La mayoría de los comentarios sobre los videos (94.87%) fueron positivos. Discusión y conclusiones: no se pudo demostrar un impacto directo en los resultados académicos pero el fácil acceso a los videos y los comentarios positivos sobre estos evidenciaron su utilidad como una herramienta complementaria para la enseñanza de la asignatura.

**PALABRAS CLAVE:** Enseñanza; recursos audiovisuales; anatomía; fisiología; innovación; educación de pregrado en medicina.

**SUMMARY:** Introduction and objective: Using videos as complementary teaching material can replace part of the teaching hours and be helpful in acquisition of knowledge in Otorhinolaryngology. To evaluate this alternative the impact of visualizations of 4 videos on performance in specific questions of the Otorhinolaryngology exam will be analyzed and students' perception of these videos will be evaluated. Method: Quasi-experimental analytical study, conducted in 213 students of Otolaryngology of Autonomous University of Madrid divided in two groups (intervention and control). Differences between intervention and control group were analyzed using the chi-square test or the exact Fisher test ( $p$  value < 0.05 statistically significant). Feedback from students on the videos was collected. Results: The total number of video visualizations was 883. Significant differences were observed ( $p < 0.01$ ) on performance in question "ear 1" with 27.78% of success rate of the experimental group versus 7.50% of the control group, and in question "neck 2" with 38.89% of success rate of the experimental group compared to 81.80% of the control group. Most opinions about the videos (94.87%) were positive. Discussion and conclusions: No significant impact on performance was found, easy access to videos and positive feedback from students highlight its usefulness as a complementary teaching material to classes in Otorhinolaryngology.

**KEYWORDS:** Teaching; Audiovisual Aids; Anatomy; Physiology; Diffusion of Innovation; Education; Medical; Undergraduate.

## INTRODUCCIÓN

El conocimiento de la Anatomía es fundamental para la adquisición de conocimientos y habilidades en medicina, y particularmente en cirugía [1]. Si bien esta es una asignatura que se estudia en profundidad, el hecho de que se imparta en los primeros cursos de medicina hace que parte de los conocimientos se olviden al llegar a cursos superiores, sobre todo en áreas tan específicas como el oído, los senos paranasales, la laringe o las vías vestibulares.

Como consecuencia de la adaptación de los programas de medicina en Europa al Plan Bolonia [2], el número de clases de varias asignaturas, incluida la Otorrinolaringología (ORL), se ha reducido. Por ejemplo, la guía docente de la Facultad de Medicina de la Universidad Autónoma de Madrid (UAM) [3] contiene actualmente 21 clases teóricas y 5 seminarios para esta asignatura, por lo que

no es posible incluir un tiempo específico en el programa para explicar la anatomía y fisiología de las diferentes áreas específicas.

Las tecnologías de la información y la comunicación (TIC) son un conjunto de herramientas, cada vez más accesibles y disponibles, que ofrecen un amplio abanico de posibilidades para compensar la reducción del número de horas docentes, y que a su vez permiten crear y difundir material didáctico complementario al recibido en el aula con el objeto de pasar del modelo tradicional de la clase magistral centrada en el profesor a los modelos actuales de educación en los que el alumno tiene más protagonismo [4].

Las TIC como complemento en la educación médica tienen muchas aplicaciones; por ejemplo, un estudio realizado con estudiantes de Medicina de la Universidad de Göttingen (Alemania) pone en relieve el valor de la enseñanza a través de videos al encontrarse que los estudiantes obtienen resultados

similares a los alcanzados con la enseñanza tradicional, proponiéndose así la utilización de clases grabadas en video como complemento y sustituto parcial de las actividades presenciales para la enseñanza teórica [5].

En los últimos años, y en particular desde la declaración de la pandemia por COVID-19, se ha evidenciado un aumento exponencial de las actividades de educación en formato digital. Por tal razón, Fan et al. [6] evaluaron recientemente el impacto del entrenamiento quirúrgico virtual a través de videos en estudiantes y en especialistas en ORL con diversos niveles de experiencia, y encontraron resultados positivos en las valoraciones de todos los grupos. En este sentido, la utilización de videos se muestra como una alternativa eficaz desde el punto de vista docente y formativo y, en el contexto de la pandemia COVID-19, una alternativa segura desde el punto de vista sanitario.

Con esta filosofía, la utilización de videos de corta duración sobre anatomía y fisiología de áreas específicas de la ORL se considera una alternativa que facilita la adquisición, de manera razonada y más intuitiva, de los conocimientos incluidos en el temario de esta asignatura. En este sentido, los objetivos de este estudio fueron analizar el impacto de la visualización de 4 videos en los resultados de 6 preguntas específicas del examen teórico de la asignatura ORL y evaluar la percepción del alumnado.

## MATERIAL Y MÉTODO

Estudio analítico cuasi experimental transversal. La población de estudio fueron los alumnos matriculados en ORL de la Facultad de Medicina de la UAM del curso académico 2019-2020 (N=220). Se excluyeron aquellos alumnos que no se presentaron al examen teórico (n=7), por lo que la muestra final de estudio fue de 213 individuos.

Los participantes se repartieron en cuatro grupos según el hospital universitario asociado a la UAM en el que recibían las clases teóricas y realizaban sus prácticas. La distribución por hospitales

se realizó al principio del curso académico según el orden de preferencia de los alumnos y fue la misma para todo el curso y todas las asignaturas, es decir, los grupos de estudiantes nunca variaron durante el año académico. El horario de clases teóricas y prácticas, así como el temario, fue común para todos los alumnos, pero las clases en cada grupo fueron impartidas por profesores diferentes pertenecientes a cada hospital. La distribución de alumnos en cada institución fue: 54 en el Hospital Universitario La Paz (HULP), 61 en el Hospital Universitario Fundación Jiménez Díaz (FJD), 53 en el Hospital Universitario Puerta de Hierro (HUPDH) y 45 en el Hospital Universitario de La Princesa (HLP).

Los alumnos asignados al HULP fueron el grupo de intervención y los de los otros hospitales el grupo de control. En la primera clase de la asignatura se les explicó sólo a los alumnos del HULP que en la plataforma Moodle tenían disponibles los enlaces de 4 videos que complementaban su formación y que debían visualizarlos antes de comenzar las clases teóricas y las prácticas. El resto de los alumnos no fueron informados oficialmente de la existencia de los mismos.

Las variables estudiadas fueron sexo, hospital al que pertenecían los alumnos, número de visualizaciones de los videos, opiniones sobre los videos y repuestas a 6 preguntas específicas del examen teórico de la asignatura ORL.

Los videos se subieron a YouTube entre el 8 y el 11 de septiembre de 2019. En la Tabla 1 se resume el contenido de los videos y se deja el enlace de estos.

El examen teórico de la asignatura se realizó el 14 de enero de 2020 con 50 preguntas y 5 opciones de respuesta. Entre estas preguntas se incluyeron 6 de anatomía o anatomía aplicada cuya respuesta figuraba de forma más o menos explícita en alguno de los cuatro videos. Para establecer el impacto de la visualización de los videos se realizó una evaluación global de las respuestas a estas 6 preguntas y se comparó el rendimiento de los estudiantes del HULP en estas mismas preguntas con el del grupo control. La Tabla 2 recoge las 6 preguntas relacionadas con los videos.

Tabla 1. Descripción de los videos complementarios sobre el área de otorrinolaringología.

VIDEO	CONTENIDO Y ENLACE
Oído y base de cráneo lateral	Se muestran las principales referencias anatómicas del oído externo, oído medio y oído interno, así como las relaciones de importancia con áreas vecinas (fosa craneal media, fosa craneal posterior y base del cráneo). Duración: 14 minutos y 33 segundos. Enlace: <a href="https://youtu.be/VJ9YARuQt1s">https://youtu.be/VJ9YARuQt1s</a> .
Cuello, faringe y laringe	Se muestran las principales referencias anatómicas cervicales (vasos, nervios, planos fasciales) con un enfoque clínico práctico, así como sus relaciones con la base del cráneo, la parte superior del tórax y el mediastino anterior. De igual forma, se hace un repaso de la fisiología de la laringe. Duración: 18 minutos y 11 segundos. Enlace: <a href="https://youtu.be/aZt54ZdJBA">https://youtu.be/aZt54ZdJBA</a> .
Nariz y senos paranasales	Se muestran las principales referencias anatómicas de la nariz y los senos paranasales, así como las relaciones de interés con áreas vecinas (órbita, fosa craneal anterior, fosa pterigomaxilar e hipófisis). De igual forma, se hace un repaso de la fisiología de la nariz y la olfacción. Duración: 17 minutos y 11 segundos. Enlace: <a href="https://youtu.be/ETH42sf19xw">https://youtu.be/ETH42sf19xw</a> .
Otoneurología y sistema vestibular	Se muestra la anatomía y la fisiología del sistema vestibular, incluyendo las vías vestibulo-oculares y vestibulo-espinales para la mejor comprensión del sistema del equilibrio y la patología vestibular. Duración: 17 minutos y 15 segundos. Enlace: <a href="https://youtu.be/FJewY-qEKRI">https://youtu.be/FJewY-qEKRI</a> .

Tabla 2. Preguntas relacionadas con los videos. Se marca en negrita la respuesta correcta.

PREGUNTA OÍDO 1 Normalmente, el implante coclear se coloca:	PREGUNTA CUELLO 1 Existe mayor riesgo de mediastinitis en los pacientes con:
<ol style="list-style-type: none"> <li>A través de la ventana oval</li> <li>Mediante cocleostomía en la rampa vestibular</li> <li>A través de la ventana redonda</li> <li>En acueducto coclear</li> <li>Todas son correctas</li> </ol>	<ol style="list-style-type: none"> <li>Absceso periamigdalino</li> <li>Absceso retrofaringeo</li> <li>Absceso parafaringeo</li> <li>Epiglotitis</li> <li>Absceso de suelo de boca</li> </ol>
PREGUNTA OÍDO 2 ¿Cuáles son las tres ramas que salen del nervio facial a nivel intratemporal?	PREGUNTA CUELLO 2 ¿Cuál es la localización más frecuente de los tumores de hipofaringe?
<ol style="list-style-type: none"> <li>Nervio petroso superficial mayor, nervio para el músculo tensor del tímpano, cuerda del tímpano</li> <li>Nervio petroso superficial mayor, nervio para el músculo del estribo, cuerda del tímpano</li> <li>Nervio petroso superficial mayor, nervio para el músculo del estribo, nervio de Jacobson</li> <li>Nervio petroso superficial mayor, nervio para el músculo tensor del tímpano, nervio de Jacobson</li> <li>Nervio petroso superficial mayor, nervio para el músculo del estribo, nervio para el músculo tensor del tímpano</li> </ol>	<ol style="list-style-type: none"> <li>Pared faríngea posterior</li> <li>Seno piriforme</li> <li>Región retrocricóidea</li> <li>Repliegue aritenoepiglótico</li> </ol> <p>Vallécula</p>
PREGUNTA NARIZ Con relación al seno maxilar, señale la correcta:	PREGUNTA OTONEUROLOGÍA Señale la correcta. La hipofunción vestibular unilateral aguda genera:
<ol style="list-style-type: none"> <li>El techo del seno maxilar está en relación con la lámina cribosa</li> <li>Una infección dental puede originar una sinusitis maxilar</li> <li>Drena en el meato inferior</li> <li>El acceso quirúrgico se hace a través de su pared posterior</li> <li>Es el último en desarrollarse durante el crecimiento</li> </ol>	<ol style="list-style-type: none"> <li>Nistagmo de fase rápida al lado hipofuncionante</li> <li>Nistagmo con misma velocidad de fase rápida y de fase lenta</li> <li>Nistagmo de fase rápida hacia el lado sano</li> <li>Nistagmo de dirección cambiante</li> <li>Oscilopsia</li> </ol>

Para valorar las opiniones sobre los videos, se revisó el apartado “opiniones sobre la rotación” en los cuadernos de rotación de los estudiantes del HULP. Se extrajeron los comentarios relativos a los videos y se agruparon según su contenido en opiniones positivas, neutras y negativas.

La descripción de los datos cualitativos se realizó mediante frecuencias absolutas y porcentajes. La hipótesis del estudio fue que la visualización de los videos mejoraría los resultados en las preguntas específicas del examen relacionadas con los contenidos presentados en los videos. Para contrastar esta hipótesis las respuestas a dichas preguntas fueron codificadas de manera anonimizada y analizadas mediante el software IBM SPSS Statistics (versión 25). Se analizó la existencia de diferencias entre el grupo de intervención y el grupo control (de manera global y separado por hospitales). La asociación entre variables cualitativas se analizó mediante la prueba  $\chi^2$  o el test exacto de Fisher cuando fue necesario. Todas las pruebas estadísticas se consideraron bilaterales y se consideró un nivel de significación  $p < 0.05$ .

Se respetaron los principios éticos para las investigaciones médicas en seres humanos de la Declaración de Helsinki [7]. Al ser un proyecto encuadrado y aceptado en la convocatoria 2018-19 de proyectos de innovación docente de la UAM [8] y no suponer ninguna variación en cuanto a las características del examen de los alumnos descritas en la guía docente de la asignatura [3], no precisó aprobación de un comité de ética ni requirió un consentimiento informado específico.

## RESULTADOS

El 17 de junio de 2020, los videos contaban con un total de 883 visualizaciones: 257 para “otoneurología y sistema vestibular”, 253 para “anatomía del oído y del hueso temporal”, 251 para “anatomía de la nariz y los senos paranasales” y 122 para “anatomía del cuello”.

De los 213 alumnos, la mayoría (155) fueron mujeres. En lo que respecta al desempeño global

en las 6 preguntas específicas, 27 (12.68%) respondieron correctamente a la pregunta de “oído 1”; 172 (80.75%), a la pregunta de “oído 2”; 194 (91.10%), a la pregunta de “nariz”; 78 (36.61%), a la pregunta de “cuello 1”; 151 (70.90%), a la pregunta de “cuello 2”; y 194 (91.10%), a la pregunta de “otoneurología” (Figura 1).

Al comparar las respuestas de los alumnos del HULP con las de los del resto de hospitales de manera global, se observaron diferencias estadísticamente significativas para la pregunta “oído 1” ( $p < 0.001$ ), con un 27.78% de aciertos en grupo intervención frente a un 7.50% en el grupo control. Asimismo, comparando este 27.78% del HULP con el porcentaje de aciertos de cada hospital por separado también se obtuvieron diferencias significativas ( $p < 0.001$ ) con cada institución: 4.92% del FJD, 7.55% del HUPDH y 11.11% del HLP.

En la pregunta “cuello 2” también hubo diferencias estadísticamente significativas en el porcentaje de aciertos ( $p < 0.001$ ) en la comparación global con un 38.89% del grupo intervención frente a 81.80% del grupo control, y comparando el resultado del HULP frente a cada hospital por separado ( $p < 0.001$ ): 81.97% del FJD, 86.79% del HUPDH y 75.56% del HLP.

El porcentaje de aciertos por pregunta y hospital se encuentra representado en la Figura 2. En el resto de las preguntas no hubo diferencias significativas, así como tampoco las hubo al hacer una comparación por sexo.

Debido a la suspensión de las rotaciones hospitalarias en marzo de 2020 por la pandemia por COVID-19, no todos los alumnos pudieron realizar sus prácticas y solo 43 estudiantes lograron completarlas en el grupo del HULP. Además, la revisión de sus cuadernos de rotación solo permitió obtener 39 opiniones ya que 4 alumnos no hicieron ningún comentario sobre los videos.

Los comentarios se agruparon en 3 categorías: opiniones positivas, neutras y negativas. En cuanto a las opiniones positivas (94.87%), 26 de alumnos valoraron positivamente la posibilidad de disponer de material didáctico complementario y 11

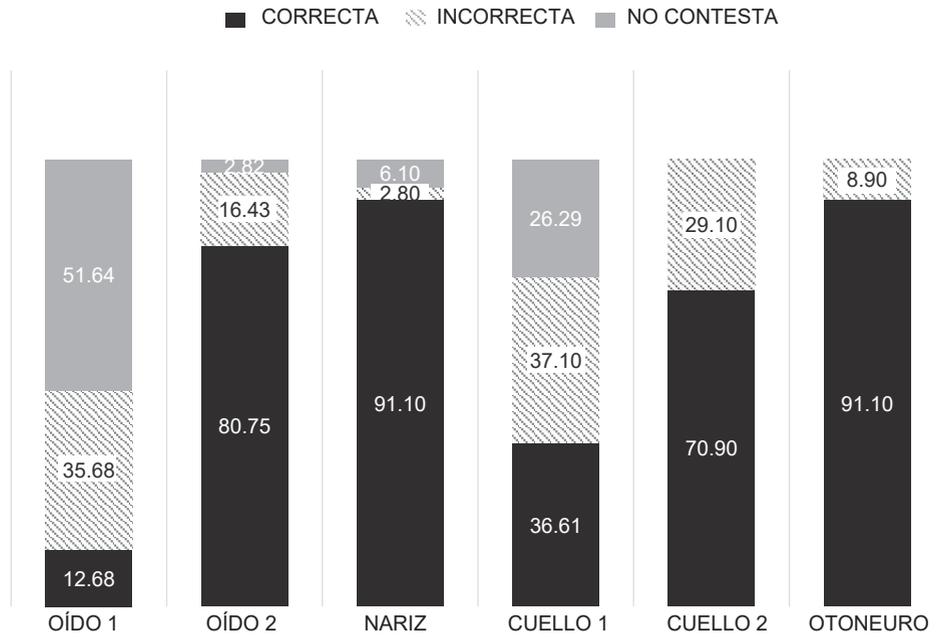


Figura 1. Porcentaje de respuestas correctas e incorrectas y preguntas sin contestar en el grupo de estudio.

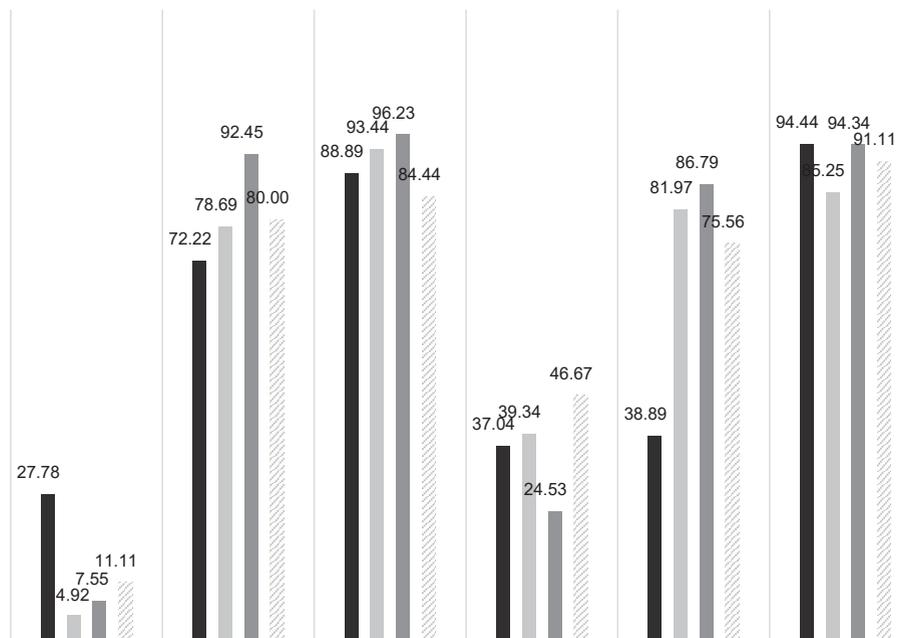


Figura 2. Porcentaje de aciertos, por pregunta y hospital.

alumnos lo hicieron con la flexibilidad que supone tener acceso a videos online. No hubo ningún comentario que pudiera etiquetarse como neutro y solo 2 estudiantes tuvieron opiniones negativas (5.13%) de los videos por su complejidad y la velocidad de la locución. En la Tabla 3 se pueden ver ejemplos de las valoraciones de los videos.

## DISCUSIÓN

La utilización de videos en el ámbito docente no es nueva. Ya en la década de los ochenta del siglo pasado se publicaron artículos al respecto que comparaban la formación tradicional, mediante clases presenciales, con la utilización de clases en formato video. Por ejemplo, tanto el trabajo de Paegle et al., [9] realizado con 61 estudiantes del Medical College of Wisconsin, como el de Kline et al., [10] realizado con 107 estudiantes de Medicina de la Universidad George Washington, mostraron resultados académicos similares entre los grupos de enseñanza tradicional y los grupos en los que se utilizaron videos. Sin embargo, existe controversia al respecto, pues sin dejar de reconocer la utilidad de los videos como complemento didáctico, algunos autores defienden la superioridad de la enseñanza presencial demostrando en sus estudios mejores resultados académicos en

el grupo de enseñanza presencial frente al grupo de enseñanza mediante videos [11, 12], mientras que en las publicaciones de los últimos años va ganando más peso la utilización de videos y material didáctico disponible en línea con resultados académicos mejores o similares a los obtenidos con la enseñanza tradicional [13-17].

En este estudio, la utilización de videos ha tenido una doble finalidad: por un lado, suplir el tiempo docente que se dedicaba tradicionalmente al recuerdo anatómico de distintas áreas de la ORL y, por otro lado, facilitar una herramienta para que los alumnos que hacen sus prácticas hospitalarias al inicio del curso académico puedan aprovecharlas e integrar los conocimientos adquiridos en las mismas a pesar de haber recibido menos clases teóricas que aquellos que realizan sus prácticas tras finalizar la asignatura.

Si las cifras de acierto y fallo de las preguntas se valoran centrándose únicamente en los datos de los alumnos del grupo intervención, los resultados de las preguntas relacionadas con los videos son aparentemente discordantes puesto que son claramente favorables para la pregunta “oído 1” (27.78% vs. 7.50%;  $p < 0.001$ ) y desfavorables en la pregunta “cuello 2” (38.89% vs. 86.79%;  $p < 0.001$ ), mientras que no hubo diferencias significativas en las cuatro preguntas restantes. Este resultado puede explicarse por dos razones:

Tabla 3. Ejemplos de comentarios sobre los videos en los cuadernos de rotación de los alumnos.

POSITIVOS	<p>RELACIONADOS CON LA UTILIDAD:</p> <p>“Muy útiles para repasar cada parte de la asignatura”                      “En ellos se enfatizan aspectos de la asignatura que no quedan tan claros en las clases o en los libros”                      “Muy buen resumen de cada parte de la especialidad”                      “Estaría bien hacer videos también de patología”</p> <p>RELACIONADOS CON FLEXIBILIDAD:</p> <p>“Aunque la locución es muy rápida es posible reproducir los videos a menor velocidad en YouTube”                      “Está muy bien disponer de videos que se puedan parar para buscar información complementaria en atlas o contrastar con los apuntes de clase”                      “Muy útiles para visualizar en el trayecto a la Facultad o de vuelta a casa”</p>
NEGATIVOS	<p>“Demasiado complejos cuando se ven antes de conocer la asignatura”                      “La locutora habla demasiado rápido, es necesario detener el video varias veces para seguirlos”</p>

En primer lugar, aunque el proyecto de innovación docente se llevó a cabo inicialmente con el grupo de alumnos del HULP, se puede asumir que estos compartieron los videos con sus compañeros de otros hospitales; de hecho, el número total de visualizaciones en YouTube (122-257, según el video) supera con creces los 54 alumnos del grupo del HULP, por lo que puede considerarse que la mayoría de toda la muestra había visto los videos y por lo tanto la unidad docente pudo no ser un factor diferenciador a la hora de responder a las preguntas.

En segundo lugar, no se puede asumir que los videos fueran la única fuente de conocimiento que motivara la respuesta correcta pues las preguntas se podrían haber contestado de forma correcta con los conocimientos adquiridos en las clases teóricas de la asignatura o por medio de libros, de apuntes, etc.

En cualquier caso, teniendo en cuenta estas posibles razones, es importante destacar la utilidad de la visualización de los videos, ya que el porcentaje global de aciertos fue mayor a 90% en dos preguntas y a 70% en otras dos.

Aunque no se pueda establecer una asociación definitiva entre la mejora de los resultados académicos y la visualización de los videos, los buenos resultados generales obtenidos en las preguntas relacionadas con los mismos y la buena acogida de estos en los comentarios de los estudiantes evidencian su utilidad como complemento didáctico.

Los resultados del presente estudio están en consonancia con los de autores que también han analizado el uso de videos para complementar la docencia teórica o práctica: en 2016, Khasawneh et al. [18] evaluaron en 67 estudiantes de tercer año de medicina la influencia de la visualización de material didáctico en formato digital en los resultados académicos durante la rotación clínica en pediatría y en el examen médico nacional y no encontraron diferencias significativas en tales resultados, aunque en dicha ocasión el alumnado resaltó la utilidad de esta nueva herramienta didáctica; previamente, en 2010, Schreiber et al. [19]

realizaron un estudio controlado y aleatorizado en el que comparaban los resultados del examen en dos grupos de 50 estudiantes cada uno (ambos grupos recibieron el mismo contenido académico pero en formatos distintos) y encontraron que al analizar las respuestas del test no hubo diferencias entre las puntuaciones de ambos grupos; estos autores también establecieron que los alumnos valoraron positivamente la posibilidad de disponer de las clases grabadas para poder visualizarlas en cualquier sitio y las veces que quieran, y de detener el video para tomar notas o hacer búsquedas en internet.

Los resultados del presente estudio evidencian que los estudiantes indicaron que disponer de videos online tiene varias ventajas, las cuales coinciden con las reportadas por Brockfeld et al. [5] e incluyen que estos se pueden visualizar tantas veces como se quiera y se pueden detener y retroceder las partes de mayor interés según sea necesario ajustándose al ritmo de aprendizaje al que cada alumno necesite, y pueden utilizarse como apoyo de las clases teóricas a la hora de estudiar el temario; además, el hecho de disponer de material didáctico online supone un ahorro de tiempo para el estudiante al no tener que desplazarse a la facultad para recibir conocimientos teóricos.

En un estudio llevado a cabo en 2015 en Canadá con 200 profesores de distintas especialidades médicas y 154 estudiantes de medicina, El Bialy y Jalali [20] investigaron la utilización de las redes sociales en el ámbito educativo y demostraron que la mayoría de los profesores y la totalidad de los alumnos son usuarios habituales de distintas redes sociales, pero solo el 33% del profesorado las utiliza como herramienta didáctica con sus alumnos. En el presente estudio se evidencia una oportunidad para disminuir la brecha digital existente entre profesores y alumnos y se pone en valor la utilización de las redes sociales como un puente entre la enseñanza tradicional y nuevos métodos más informales, pero altamente atractivos para los estudiantes, que además les permiten continuar aprendiendo

fuera del aula. Existe una clara predilección por la enseñanza digital por parte de los alumnos y una preferencia por métodos presenciales por parte del profesorado [21], pero como ya sugirió Prensky hace 20 años [22], la transformación digital ha llegado para quedarse y será aún más importante en generaciones venideras. En el presente estudio se eligió la plataforma YouTube para difundir los videos por ser la más conocida y utilizada para compartir videos en la red [23, 24]. La utilización de YouTube como medio de difusión de los videos tuvo muy buena acogida entre los alumnos como demuestran los comentarios y el número de visualizaciones, que es muy superior al de los alumnos a los que originalmente iba dirigido y en algún caso incluso superior al número total de alumnos del curso académico 2019-2020.

#### TECNOLOGÍA DIGITAL Y COVID 19

Las circunstancias sanitarias excepcionales generadas por la pandemia de COVID-19 han acelerado el proceso de enseñanza online, en algunos casos sin posibilidad de elección de una alternativa presencial tradicional. Un estudio llevado a cabo en este contexto en la Facultad de Medicina de la Universidad Nacional de Seúl [21], en el que se impartieron las clases teóricas de los cuatro primeros años de la carrera de manera online, pone de manifiesto un alto porcentaje de satisfacción de los alumnos con la docencia online y su preferencia por continuar con este sistema cuando la pandemia acabe. Asimismo, recientemente se ha publicado un estudio de la Universidad de Pensilvania (Estados Unidos) [24] en el que se ha llevado a cabo una rotación virtual en ORL como alternativa a la suspensión temporal de las rotaciones presenciales por la COVID-19 con valoraciones positivas de los participantes.

De igual forma, en los últimos años el uso de las redes sociales se ha incrementado notablemente por el alcance global y la facilidad de acceso para el usuario, de difusión de contenido audiovisual y de establecer discusiones en tiempo real. Durante la

pandemia de COVID-19 el papel de las redes sociales ha sido muy relevante y ha contribuido a la rápida diseminación de actualizaciones epidemiológicas, resultados clínicos y protocolos de tratamiento [23].

#### LIMITACIONES Y FORTALEZAS

La principal limitación de este estudio es el sesgo que supone que los videos inicialmente dirigidos a un grupo específico de alumnos pudieron haber sido visualizados por el resto de los participantes del estudio. Esta limitación se tuvo en cuenta desde la fase de diseño del estudio, pero por razones éticas se decidió no limitar el acceso a los videos. Si bien el acceso a los videos podría suponer una ventaja teórica para los alumnos del grupo intervención, los del grupo control tenían medios disponibles para contestar correctamente las preguntas relacionadas con los videos.

El beneficio de la creación y utilización de videos no se limita a los estudiantes. En su faceta investigadora, los docentes están cada vez más necesitados de disponer del conocimiento, básico o avanzado, del software necesario para la edición de video. La inclusión de videos en cursos y congresos es la norma en los últimos años, situación agravada por la pandemia actual.

#### CONCLUSIONES

El número de visualizaciones de los videos objeto del estudio fue muy superior al número de estudiantes al que inicialmente iban dirigidos, lo cual pone de manifiesto su buena acogida.

Aunque no se ha podido demostrar un impacto directo de los videos en los resultados académicos, en el presente estudio los comentarios del alumnado pusieron en relieve su utilidad como una herramienta complementaria a las clases teóricas y las prácticas en la asignatura de ORL.

Con base en el número de visualizaciones y comentarios positivos, se propuso la utilización de los videos de forma sistemática en la asignatura de ORL desde el año académico 2020/2021.

## AGRADECIMIENTOS

Agradecimiento a Itsaso Losantos García de la Sección de Bioestadística del Hospital Universitario La Paz por las aportaciones metodológicas y estadísticas.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Estai M, Bunt S. Best teaching practices in anatomy education: A critical review. *Annals of anatomy = Anatomischer Anzeiger : official organ of the Anatomische Gesellschaft.* 2016;208:151-7. doi: 10.1016/j.aanat.2016.02.010.
2. Sursock A, Smidt H. Trends 2010: A decade of change in European Higher Education.: *European University Association* 6-10; 2010 [Last accessed: 2021, Sep 9]. Available from: <https://bit.ly/2X3iS96>
3. UAM. Guía Docente de Otorrinolaringología. Graduado en Medicina. Madrid: Universidad Autónoma de Madrid; 2014 [Available from: <https://bit.ly/3zvkd6K>].
4. Ausín V, Abella V, Delgado V, Hortigüela D. Aprendizaje Basado en Proyectos a través de las TIC: Una Experiencia de Innovación Docente desde las Aulas Universitarias. *Formación universitaria.* 2016;9(3):31-8. doi: 10.4067/S0718-50062016000300005.
5. Brockfeld T, Müller B, de Laffolie J. Video versus live lecture courses: a comparative evaluation of lecture types and results. *Medical education online.* 2018;23(1):1555434. doi: 10.1080/10872981.2018.1555434.
6. Fan T, Workman AD, Koch G, Rathi VK, Scangas GA, Metson R. Educational utility of an online video-based teaching tool for sinus and skull base surgery. *Laryngoscope investigative otolaryngology.* 2021;6(2):195-9. doi: 10.1002/lio.2551
7. Declaración de Helsinki de la Asociación Médica Mundial. Principios éticos para las investigaciones médicas en seres humanos. Fortaleza: 64.a Asamblea General de la AMM;2013 [Available from: <https://goo.gl/hvf711>]
8. UAM. Convocatoria de Innovación Docente 1819 Madrid: Universidad Autónoma de Madrid; 2018 [Available from: <http://bit.ly/2Y9de5k>].
9. Paegle RD, Wilkinson EJ, Donnelly MB. Videotaped vs traditional lectures for medical students. *Medical education.* 1980;14(6):387-93. doi: 10.1111/j.1365-2923.1980.tb02389.x.
10. Kline P, Shesser R, Smith M, Turbiak T, Rosenthal R, Chen H, et al. Comparison of a videotape instructional program with a traditional lecture series for medical student emergency medicine teaching. *Annals of emergency medicine.* 1986;15(1):16-8. doi: 10.1016/s0196-0644(86)80480-2.
11. Ramlogan S, Raman V, Sweet J. A comparison of two forms of teaching instruction: video vs. live lecture for education in clinical periodontology. *European journal of dental education : official journal of the Association for Dental Education in Europe.* 2014;18(1):31-8. doi: 10.1111/eje.12053.
12. Williams A, Birch E, Hancock P. The impact of online lecture recordings on student performance. *Australasian Journal of Educational Technology.* 2012;28(2). doi: <https://doi.org/10.14742/ajet.869>
13. Kauffman CA, Derazin M, Asmar A, Kibble JD. Relationship between classroom attendance and examination performance in a second-year medical pathophysiology class. *Advances in physiology education.* 2018;42(4):593-8. doi: 10.1152/advan.00123.2018.
14. Pei L, Wu H. Does online learning work better than offline learning in undergraduate medical education? A systematic review and meta-analysis. *Medical education online.* 2019;24(1):1666538. doi: 10.1080/10872981.2019.1666538.
15. Stevens NT, Holmes K, Grainger RJ, Connolly R, Prior AR, Fitzpatrick F, et al. Can e-learning improve the performance of undergraduate medical students in Clinical Microbiology examinations? *BMC medical education.* 2019;19(1):408. doi: 10.1186/s12909-019-1843-0.
16. Liu Q, Peng W, Zhang F, Hu R, Li Y, Yan W. The Effectiveness of Blended Learning in Health Professions: Systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of medical Internet research.* 2016;18(1):e2. doi: 10.2196/jmir.4807.
17. Ruiz JG, Mintzer MJ, Leipzig RM. The impact of E-learning in medical education. *Academic*

- medicine : journal of the Association of American Medical Colleges. 2006;81(3):207-12. doi: 10.1097/00001888-200603000-00002.
18. Khasawneh R, Simonsen K, Snowden J, Higgins J, Beck G. The effectiveness of e-learning in pediatric medical student education. *Medical education online*. 2016;21:29516. doi: 10.3402/meo.v21.29516.
  19. Schreiber BE, Fukuta J, Gordon F. Live lecture versus video podcast in undergraduate medical education: A randomised controlled trial. *BMC medical education*. 2010;10:68. doi: 10.1186/1472-6920-10-68.
  20. El Bialy S, Jalali A. Go Where the Students Are: A Comparison of the Use of Social Networking Sites Between Medical Students and Medical Educators. *JMIR medical education*. 2015;1(2):e7. doi: 10.2196/mededu.4908.
  21. Kim JW, Myung SJ, Yoon HB, Moon SH, Ryu H, Yim JJ. How medical education survives and evolves during COVID-19: Our experience and future direction. *PloS one*. 2020;15(12):e0243958. doi: 10.1371/journal.pone.0243958.
  22. Prensky M. Digital Natives, Digital Immigrants Part 1. *On the Horizon*. 2001;9(5):1-6.
  23. Laurentino Lima D, Nogueira Cordeiro Laurentino Lima R, Benevenuto D, Soares Raymundo T, Shadduck PP, Melo Bianchi J, et al. Survey of Social Media Use for Surgical Education During Covid-19. *JLS : Journal of the Society of Laparoscopic Surgeons*. 2020;24(4). doi: 10.4293/JLS.2020.00072.
  24. Byrnes YM, Luu SN, Frost AS, Chao TN, Brody RM, Cannady SB, et al. Evaluation of an interactive virtual surgical rotation during the COVID-19 pandemic. *World journal of otorhinolaryngology - head and neck surgery*. 2021;24;8(4):302-7. doi: 10.1016/j.wjorl.2021.04.001.



## ESTUDIO RETROSPECTIVO DE LA INCIDENCIA DE LOS ABSCESOS PERIAMIGDALINOS Y PARAFARÍNGEOS EN EL PERIODO 2000-2021

### *Retrospective study of the incidence of peritonsillar and parapharyngeal abscesses in the period 2000-2021*

Juan LOSADA-CAMPA<sup>1</sup>; José Ignacio BENITO-OREJAS <sup>1</sup>; María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ <sup>1</sup>;  
Mariana GONZÁLEZ-SOSTO <sup>1</sup>; María Fe MUÑOZ-MORENO <sup>2</sup>; Jaime SANTOS-PÉREZ <sup>1</sup>

SACYL. Hospital Clínico Universitario de Valladolid.

<sup>1</sup> Servicio Otorrinolaringología.

<sup>2</sup> Servicio de Bioestadística de la Unidad de Apoyo a la Investigación. Valladolid. España.

Correspondencia: [jlosadacampa@gmail.com](mailto:jlosadacampa@gmail.com)

Fecha de recepción: 23 de mayo de 2023

Fecha de aceptación: 17 de junio de 2023

Fecha de publicación: 17 de julio de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 18 de diciembre de 2023

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses

Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes

Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO)

Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional

Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

**RESUMEN:** Introducción y objetivo: Las infecciones faringo-amigdalares y sus complicaciones son muy frecuentes y con características epidemiológicas variables, de unos países a otros. El objetivo de este trabajo ha consistido en determinar la incidencia, edad, género y estacionalidad, de los pacientes ingresados con amigdalitis (A), absceso periamigdalino (AP) y parafaríngeo (APF), en un hospital de tercer nivel, en Valladolid (España). Método: Estudio retrospectivo de 1339 pacientes ingresados en HCUV entre los años 2000 y 2021 por infecciones faringocervicales (A, AP y APF). Resultados: La media de edad de los pacientes ingresados con A es de 27,8 años, con AP de 35,5 y con APF de 47 años, siendo esta diferencia estadísticamente significativa ( $p < 0,001$ ). La amigdalitis predomina en mujeres (ratio: 1,26), y en hombres el AP (ratio: 1,44) y el APF (ratio: 2,4). No hemos encontrado relación significativa de estos procesos ni con los meses del año ni con las estaciones climáticas. Discusión: Las diferencias de género, edad media y estacionalidad entre la A y el AP generan controversia para poder entender el origen del AP y la posible influencia de los

factores de riesgo. Hay pocos estudios epidemiológicos publicados sobre el APF, cuya incidencia parece que está aumentando, por causas desconocidas. Conclusiones: La A destaca en la infancia, el AP en adultos jóvenes y el APF en más mayores. Salvo la A y el AP en adolescentes, que predominan en mujeres, el resto de los abscesos faringocervicales son más frecuentes en hombres. En la población estudiada el clima no parece un factor etiopatogénico importante.

**PALABRAS CLAVE:** epidemiología; edad; género; estación; absceso periamigdalino; absceso parafaríngeo.

**SUMMARY:** Introduction and objective: Pharyngotonsillar infections and their complications are very frequent, and their epidemiological characteristics vary from one country to another. The aim of this study was to determine the incidence, age, gender and seasonality of patients admitted with tonsillitis (T), peritonsillar abscess (PT) and parapharyngeal abscess (PPA) in a tertiary hospital in Valladolid (Spain). Method: Retrospective study of 1339 patients admitted to HCUV between 2000 and 2021 for pharyngo-cervical infections (A, PA and PPA). Results: The mean age of patients admitted with A was 27.8 years, 35.5 years with PA and 47 years with PPA, this difference being statistically significant ( $p < 0.001$ ). Tonsillitis predominates in women (ratio: 1.26), and in men PA (ratio: 1.44) and PPA (ratio: 2.4). We found no significant relationship between the frequency of these processes and the months of the year or climatic seasons. Discussion: The differences in gender, mean age and seasonality between A and PA generate controversy in order to understand the origin of PA and the possible influence of risk factors. There are few epidemiological studies published on PPA, whose incidence seems to be increasing, for unknown causes. Conclusions: A tends out in childhood, PA in young adults and PPA in older patients. Except for A and PPA in adolescents, which predominate in women, the rest of the pharyngo-cervical abscesses are more frequent in men. In the population studied, climate does not seem to be an important etiopathogenic factor.

**KEYWORDS:** epidemiology; age; gender; season; peritonsillar abscess; parapharyngeal abscess.

## INTRODUCCIÓN

El absceso periamigdalino (AP) es la infección profunda más frecuente de cabeza y cuello en adultos jóvenes (10-40 años) [1-3] con una incidencia anual variable en la literatura de 9 a 41 casos/100.000 habitantes [4]. A pesar de su elevada prevalencia, se sigue debatiendo sobre su patogenia, de forma que, mientras en general, se considera que el AP es una complicación de la amigdalitis aguda [5], hay quien propone como causa, la obstrucción de las glándulas salivales menores supratonsilares de Weber conectadas a la superficie amigdalina [6-9], e incluso se discute, que ambas teorías puedan ser complementarias [8-9].

A partir de una infección de la amígdala palatina, si el proceso inflamatorio continúa, se constituye un flemón (celulitis no delimitada), que,

si progresa, tras la formación de una membrana piógena, adquiere la forma de absceso, que se consolida entre la cápsula amigdalina y la fascia de los músculos constrictor superior de la faringe y palatofaríngeo [7, 10]. Remitimos al lector a las descripciones sobre su sintomatología, diagnóstico y tratamiento [2, 4, 11]. Si el absceso se localiza externamente a la musculatura constrictora faríngea, hablamos de absceso parafaríngeo (APF); latero o retrofaríngeo, según se localice lateral o posteriormente a la faringe. Puede ser el resultado de la extensión directa de la infección desde un foco dentario o amigdalina, o constituirse indirectamente, a partir de la supuración de los ganglios linfáticos, tras una infección de la vía aérea [12]. La difusión de este proceso a la circulación sanguínea o su extensión, a través de las fascias del cuello al

mediastino, puede poner en peligro la vida del paciente [12].

En contraste con la amigdalitis aguda, los factores de riesgo del AP no están bien definidos [4]. Afecta a todos los grupos sociales, con o sin infección amigdalar previa y se describen diferentes circunstancias favorecedoras, como la prevalencia de la flora bacteriana, la influencia del hábito tabáquico y del alcohol, la polución ambiental, la infección periodontal, la formación de biopelículas bacterianas en el tejido amigdalar y cambios en la anatomía, en la microflora amigdalar y en la respuesta del sistema inmunológico local y sistémico; lo que hace suponer, que la causa pueda ser múltiple [4].

Teníamos la sospecha de que en verano acudían a nuestro servicio un mayor número de pacientes con abscesos faringo-amigdalares, que durante el resto del año; así que, para corroborar nuestra hipótesis, planificamos un estudio más amplio, que tuviera como objetivo, definir las tres variables clínico-epidemiológicas más características de esta patología: la edad, el género y la estacionalidad. Contamos con los datos de una extensa población y aunque se ha estudiado la influencia de estos determinantes en otros países, no hemos encontrado ninguno tan amplio, en el nuestro. La variabilidad de resultados publicados y su análisis posterior, constituyen hoy en día un importante foco de discusión sobre la etiopatogenia de estos procesos.

## MATERIAL Y MÉTODO

Los datos se obtuvieron a través del Servicio de Estadística del Hospital Clínico Universitario de Valladolid (HCUV), tras la aceptación previa del trabajo por el Comité de Ética de la Investigación (CEIM Área de Salud Valladolid Este) el 27 de octubre de 2022 (PI 22-2924). Se trata de un estudio retrospectivo y monocéntrico, en el periodo comprendido entre los años 2000 a 2021, ambos inclusive, de los pacientes cuyo ingreso en el HCUV (de tercer nivel), fuera codificado con

los diagnósticos de A, AP y APF (que comprende los abscesos retro y laterofaríngeo).

Para la selección de casos, hemos utilizado la Clasificación Internacional de Enfermedades (CIE). Hasta 2015 incluido (CIE-9) escogimos los siguientes códigos: absceso peritonsilar (475) y absceso parafaríngeo (478.22 y 478.24) y a partir de 2016 (CIE-10) los aplicados fueron J36 (absceso periamigdalino), J39 (absceso retro y parafaríngeo), J03.90 (amigdalitis aguda no específica) y J03.91 (amigdalitis aguda recurrente).

De cada uno de estos 3 grupos (A, AP y APF), se identificaron la edad media (rango, mediana, desviación estándar), la prevalencia de género y la distribución, en función de la estacionalidad climática.

También analizamos la repartición de los procesos en función del género y de su asignación en los siguientes grupos de edad (0-14, 15-19, 20-29, 30-39, 40-49, 50-59, 60-69, > 69 años).

Obtuvimos la incidencia de AP y APF, acotando un periodo de 10 años (2010-2019), pues no disponíamos del censo de población de nuestra área de salud, en los primeros años del estudio.

Finalmente, buscamos la correlación de cada grupo (A, AP y APF), con el mes de aparición del proceso y con la estación climática, considerando la primavera del 1 de marzo al 31 de mayo, el verano del 1 de junio al 31 de agosto, el otoño del 1 de septiembre al 30 de noviembre y el invierno del 1 de diciembre al 27/28 de febrero.

Análisis estadístico: las variables cuantitativas se presentan con la media y la desviación típica y las cualitativas según su distribución de frecuencias. Se ha utilizado el test de Kolmogorov Smirnov para la comprobación de la normalidad. Mediante el test Chi-cuadrado de Pearson, se analiza la asociación de las variables cualitativas. En el caso de que el número de celdas con valores esperados menores de 5 sea mayor de un 20%, aplicamos el test exacto de Fisher o el test Razón de verosimilitud para variables con más de dos categorías. Para comparar los valores cuantitativos aplicamos la prueba T de

Student para muestras independientes. Los datos han sido analizados con el programa estadístico IBM SPSS Statistics versión 26.0 para Windows, EPIDAT 3.1: análisis epidemiológico de datos tabulados y el programa de Dean AG, Sullivan KM, Soe MM, OpenEpi: Open Source Epidemiologic Statistics for Public Health, Versión. www.OpenEpi.com. Aquellos valores de  $p < 0,05$  fueron considerados estadísticamente significativos.

## RESULTADOS

En la Tabla 1 se muestra la relación de pacientes incluidos en los dos periodos de clasificación aplicados en la búsqueda (CIE-9: 2000 a 2015 y CIE-10: 2016 a 2021). Durante los años 2000-2021, se descartaron por documentación inservible 11 pacientes, disponiendo para este estudio de un total de 1339 procesos (A, AP, AFC). En 24 (20 AP, 3 AC y 1 A), los datos eran incompletos.

Como se observa en la Tabla 1, los APF corresponden al 13% de AP, en el primer periodo y al 22% en el segundo, creciendo de manera significativa. El número de amigdalitis agudas o recidivantes (A) ingresadas en la etapa 2016-2021, representa el 56% de los AP en el mismo intervalo y finalmente, los porcentajes relativos de ingreso por estas 3 causas son un 56% de AP, 12% de APF y 32% de A.

La Tabla 2 ofrece las relaciones edad/género, por tramos de edad, de los AP y APF. La edad media a la que acontecen estos procesos (A, AP y APF) es significativamente diferente ( $p < 0,001$ ), especialmente entre los hombres ( $p < 0,001$ ), siendo más similar entre las mujeres ( $p 0,008$ ). La Tabla 3 presenta los datos de incidencia global y por periodos etarios de los AP y APF, en nuestra población sanitaria, registrados entre 2010 y 2019. En las Figuras 1 a 3 se compara, en columnas agrupadas, la distribución del número total de casos de AP, APF y A, en función de la edad y del género. En la Figura 4 se representa la relación de pacientes ingresados con AP y con APF en las distintas edades consideradas. Finalmente, el gráfico de columnas de la Figura 5, relaciona el porcentaje relativo de casos de AP, APF y A, en función de la edad, durante el periodo 2016-2021.

Absceso periamigdalino (AP): La media anual de casos de AP ingresados en el HCUV durante los 22 años de estudio ha sido de 45-48 ingresos/año, de una población total de 1.018 pacientes (998 con datos completos), 59% en hombres y 40% en mujeres, con una ratio de casos hombres/mujeres del 1,47 (Tablas 2 y 3). El mayor número de AP ocurre, tanto en hombres como en mujeres, entre los 20 y 39 años (51% del total de casos), (Figura 1 y Tabla 2). La edad media de los pacientes con AP

Tabla 1. Relación del número de casos analizados en función del diagnóstico (absceso periamigdalino -AP, absceso parafaríngeo -APF- y amigdalitis -A-), y del periodo considerado (2000-2015 y 2016-2021), de acuerdo con la codificación CIE-9 y CIE-10.

	Absceso periamigdalino (AP): 475 (CIE-9) J36 (CIE-10)	Absceso faringocervical (AFC)		Amigdalitis (A): J03.90 y J03.91 (CIE-10)	Total
		Parafaríngeo (APF): 478.22 y 478.24 (CIE-9) J39 (CIE-10)	Cuello (AC): 628.1 (CIE-9)		
2000 a 2015 (16 años) (CIE-9)	730 45 casos/año	96 (13% de AP) 6 casos/año	55 (7,5% de AP) (3 casos/año)		881
2016 a 2021 (5 años) (CIE-10) (porcentaje relativo)	288 (57 casos/año) (56%)	63 (22% de AP) (13 casos/año) (12%)		162 (56% de AP) (32%)	513 (100%)
Totales	1018 (73%)	159 (11,5%)	55 (4%)	162 (11,5%)	1394

ESTUDIO RETROSPECTIVO DE LA INCIDENCIA DE LOS ABSCESOS PERIAMIGDALINOS Y PARAFARÍNGEOS EN EL PERIODO 2000-2021

LOSADA-CAMPA J, BENITO-OREJAS JI, SAN MILLÁN\_GONZÁLEZ M ET AL.

Tabla 2. Distribución de casos y porcentaje (%) de abscesos periamigdalinos (AP), abscesos parafaríngeos (APF) y amigdalitis (A), en función del género y de los periodos etarios considerados. En la última columna, edad media  $\pm$  desviación estándar, (mediana), (rango) y significación estadística ( $p < 0,05$ ) de la diferencia de edad entre hombres y mujeres. En sombreado, los periodos con mayor frecuencia de procesos.

	EDAD (años)	0 a 14	15 a 19	20 a 29	30 a 39	40 a 49	50 a 59	60 a 69	> 69 años	TOTALES	Edad media $\pm$ DS (Me) (rango)
Absceso periamigdalino (AP)	Hombres (%)	17 (3%)	65 (11%)	142 (24%)	165 (28%)	76 (13%)	68 (11,5%)	36 (6%)	25 (4%)	594 (59,5%)	36,6 $\pm$ 16 (34) (2 a 101 años)
	Mujeres (%)	12 (3%)	64 (16%)	104 (26%)	100 (25%)	62 (15%)	31 (8%)	20 (5%)	11 (3%)	404 (40,5%)	33,7 $\pm$ 15 (31) (4 a 85 años)
	Significación										<i>p</i>
	Totales	29/998 (2,9%)	129/998 (12,9%)	246/998 (24,6%)	265/998 (26,5%)	138/998 (13,8%)	99/998 (9,9%)	56/998 (5,6%)	36/998 (3,6%)	998	35,5 $\pm$ 16 (33) (2 a 101 años)
Absceso faríngeo/cervical (AFC)	Porcentaje									(100%)	
	Hombres (%)	4 (2,7%)	2 (1,3%)	17 (11%)	30 (20%)	24 (16%)	24 (16%)	31 (21%)	16 (11%)	148 (70%)	48 $\pm$ 17,7 (46,5) (2 a 90 años)
	Mujeres (%)	5 (8%)	4 (6%)	12 (19%)	7 (11%)	7 (11%)	8 (13%)	6 (9,5%)	14 (22%)	63 (30%)	45,6 $\pm$ 24,3 (44) (4 a 90 años)
	Totales	9/211 (4%)	6/211 (3%)	29/211 (14%)	37/211 (17,5%)	31/211 (15%)	32/211 (15%)	37/211 (17,5%)	30/211 (14%)	211	47,3 $\pm$ 20 (45) (2 a 90 años)
Absceso parafaríngeo (APF)	Hombres (%)	3 (2,7%)	1 (1%)	8 (7%)	27 (24,5%)	19 (17%)	16 (14,5%)	22 (20%)	14 (13%)	110 (69%)	48,6 $\pm$ 17,7 (45,5) (2 a 90 años)
	Mujeres (%)	5 (10%)	2 (4%)	11 (22,5%)	6 (12%)	5 (10%)	7 (14%)	4 (8%)	9 (18%)	49 (31%)	43,4 $\pm$ 24 (40) (4 a 90 años)
	Significación										<i>p</i>
	Totales	8/159 (5%)	3/159 (2%)	19/159 (12%)	33/159 (21%)	24/159 (15%)	26/159 (16%)	23/159 (14,5%)	23/159 (14,5%)	159	47 $\pm$ 20 (45) (2 a 90 años)

ESTUDIO RETROSPECTIVO DE LA INCIDENCIA DE LOS ABSCESOS PERIAMIGDALINOS Y PARAFARÍNGEOS EN EL PERIODO 2000-2021

LOSADA-CAMPA J, BENITO-OREJAS JI, SAN MILLÁN\_GONZÁLEZ M ET AL.

Tabla 3. Cálculo de la incidencia anual: () = número de casos/100.000 habitantes/año, durante los años 2010 a 2019, en relación con la población general de nuestra área de salud, por periodos de edad y género de los siguientes procesos: absceso periamigdalino (AP) y absceso parafaríngeo (APF).

	0 a 14	15-19	20-29	30-39	40-49	50-59	60-69	> 69	Totales
Totales hombres y mujeres	306.638	103.352	265.055	389.144	424.834	379.252	332.157	458.597	2.659.029
media anual	30.664	10.335	26.505	38.914	42.483	37.925	33.216	45.860	265.903
Total AP	21	60	97	132	77	56	21	22	486
AP/año	2,1 (6,8)	6 (58)	9,7 (36,6)	13,2 (33,9)	7,7 (18,1)	5,6 (14,8)	2,1 (6,3)	2,2 (4,8)	48,6 (18,3)
Total AFC	6	2	7	26	14	18	15	14	102
AFC/año	0,6 (1,9)	0,2 (2)	0,7 (2,6)	2,6 (6,7)	1,4 (3,3)	1,8 (4,7)	1,5 (4,5)	1,4 (3)	10,2 (3,8)
Total APF	6	1	6	25	11	16	12	13	90
APF/año	0,6 (1,9)	0,1 (1)	0,6 (2,3)	2,5 (6,4)	1,1 (2,6)	1,6 (4,2)	1,2 (3,6)	1,3 (2,8)	9 (3,4)
Total HOMBRES	157.086	52.315	133.186	200.754	216.107	186.561	161.490	191.419	1.298.918
media anual hombres	15.709	5.231	13.319	20.075	21.611	18.656	16.149	19.142	129.892
AP totales hombres	13	26	57	78	38	43	12	14	281
AP/año hombres	1,3 (8,3)	2,6 (49,7)	5,7 (42,8)	7,8 (38,8)	3,8 (17,6)	4,3 (23)	1,2 (7,4)	1,4 (7,3)	28,1 (21,6)
AFC totales hombres	3	2	3	22	10	13	14	6	73
AFC/año hombres	0,3 (1,9)	0,2 (3,8)	0,3 (2,2)	2,2 (10,9)	1 (4,6)	1,3 (6,9)	1,4 (8,7)	0,6 (3,1)	7,3 (5,6)
APF totales hombres	3	1	2	21	8	11	11	6	63
APF/año hombres	0,3 (1,9)	0,1 (1,9)	0,2 (1,5)	2,1 (10,4)	0,8 (3,7)	1,1 (5,9)	1,1 (6,8)	0,6 (3,1)	6,3 (4,8)
Total MUJERES	149.552	51.037	131.869	188.390	208.727	192.691	170.667	267.178	1.360.111
media anual mujeres	14.955	5.104	13.187	18.839	20.873	19.269	17.067	26.718	136.011
AP totales mujeres	8	34	40	54	39	13	9	8	205
AP/año mujeres	0,8 (5,3)	3,4 (66,6)	4 (30,3)	5,4 (28,7)	3,9 (18,7)	1,3 (6,7)	0,9 (5,2)	0,8 (3)	20,5 (15)
AFC totales mujeres	3	0	4	4	4	5	1	8	29
AFC/año mujeres	0,3 (2)	0 (0)	0,4 (3)	0,4 (2,1)	0,4 (1,9)	0,5 (2,6)	0,1 (0,6)	0,8 (3)	2,9 (2,1)
APF totales mujeres	3	0	4	4	3	5	1	7	27
APF/año mujeres	0,3 (2)	0 (0)	0,4 (3)	0,4 (2,1)	0,3 (1,4)	0,5 (2,6)	0,1 (0,6)	0,7 (2,6)	2,7 (2)

es de 35,5±16 años, algo superior en los hombres que en las mujeres ( $p < 0,005$ ) (Tabla 2).

Si estratificamos los resultados en función de la población general de nuestra área de salud, entre los años 2010 a 2019, obtenemos una media de población anual de 265.903 habitantes, con una incidencia de 18,3 casos /100.000 habitantes/año de AP, afectando a 21,6 hombres/100.000 hombres/año y a 15 mujeres/100.000 mujeres/año, con una ratio de incidencia hombres mujeres de 1,44, muy similar a la obtenida por el número de casos y también significativa ( $p < 0,001$ ) (Tablas 2 y 3). El

pico de mayor incidencia de AP en función de la población general, se produce durante el periodo de 15 a 19 años ( $p < 0,002$ ), prevaleciendo en las mujeres. En los hombres, destaca entre los 20 y 39 años, para decaer posteriormente la incidencia general (Figuras 5 y 6).

Amigdalitis aguda (A): Los 162 procesos analizados entre los años 2016 a 2021, que fueron motivo de ingreso, representan el 56% de los AP aparecidos durante dicho periodo (Tabla 1). Más frecuente en mujeres (56%) que, en hombres (44%). La edad media es de 27,8±14,5 años, significativamente

ESTUDIO RETROSPECTIVO DE LA INCIDENCIA DE LOS ABSCESOS PERIAMIGDALINOS Y PARAFARÍNGEOS EN EL PERIODO 2000-2021

LOSADA-CAMPA J, BENITO-OREJAS JI, SAN MILLÁN\_GONZÁLEZ M ET AL.

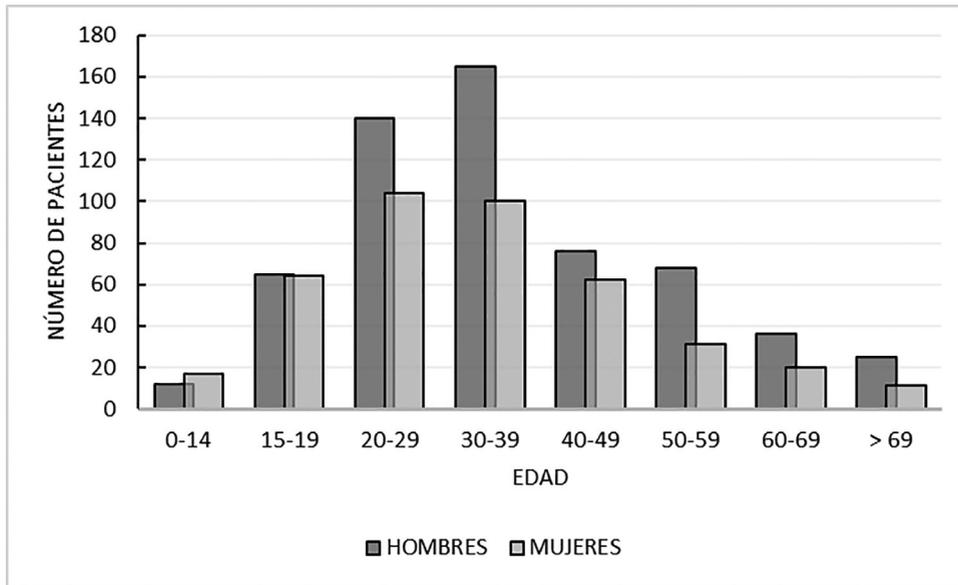


Figura 1. Distribución de todos los pacientes diagnosticados de absceso periamigdalino (2000-2021) por periodos de edad y género.

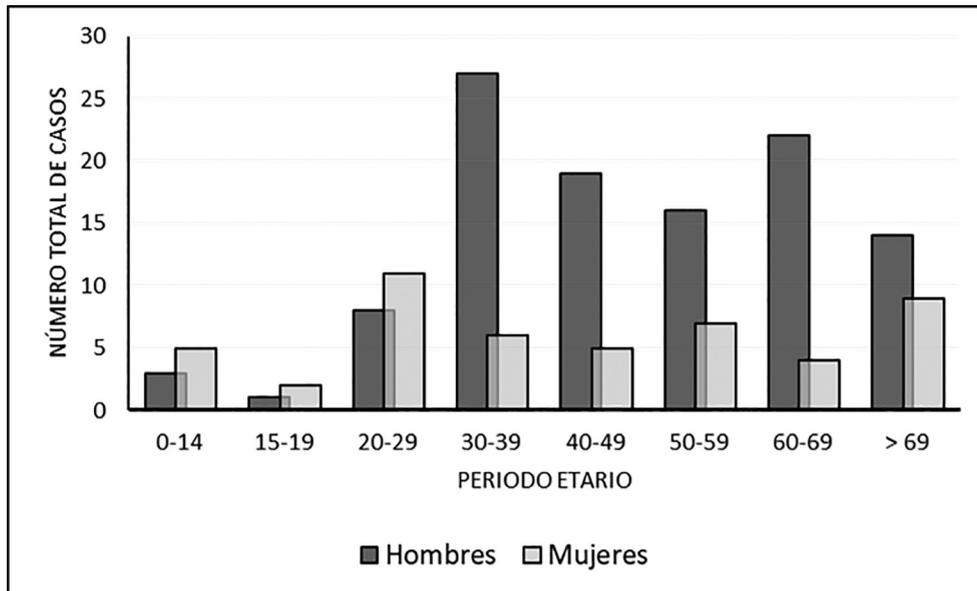


Figura 2. Distribución de todos los pacientes diagnosticados de absceso parafaríngeo (2000-2021) por periodos de edad y género.

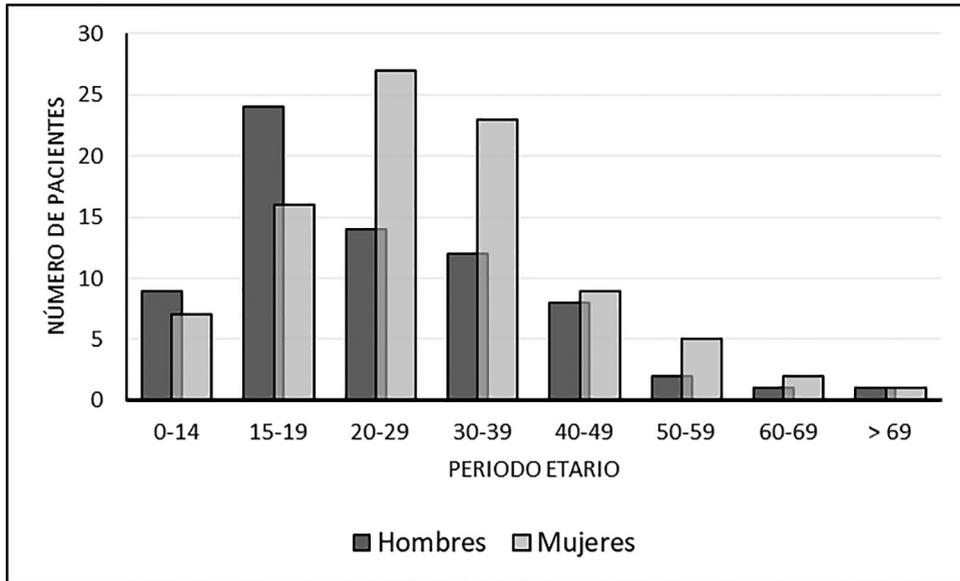


Figura 3. Distribución de todos los pacientes ingresados de amigdalitis inespecífica o recurrente (2016-2021) por periodos de edad y género.

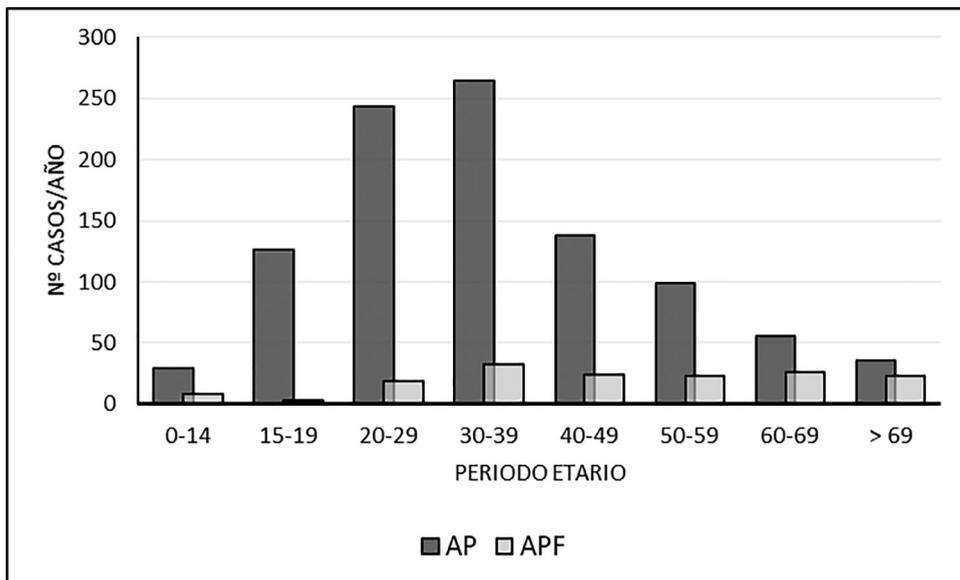


Figura 4. Número total de casos de absceso periamigdalino (AP) y parafaríngeo (APF) en 22 años (2000-2021), distribuidos por periodos de edad.

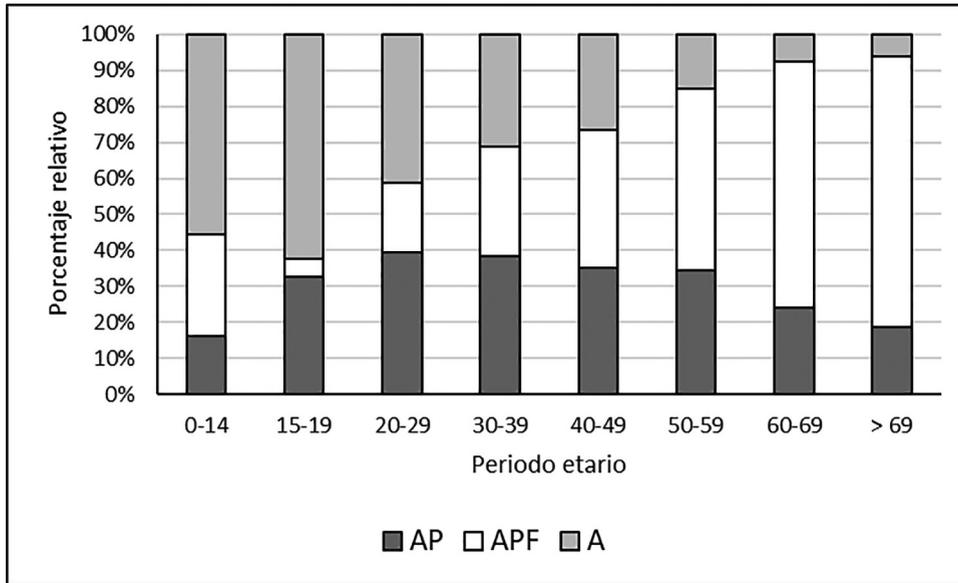


Figura 5. Proporción relativa de casos en el periodo 2016-2021 entre amigdalitis (A), absceso periamigdalino (AP) y absceso parafaríngeo (APF), según la edad.

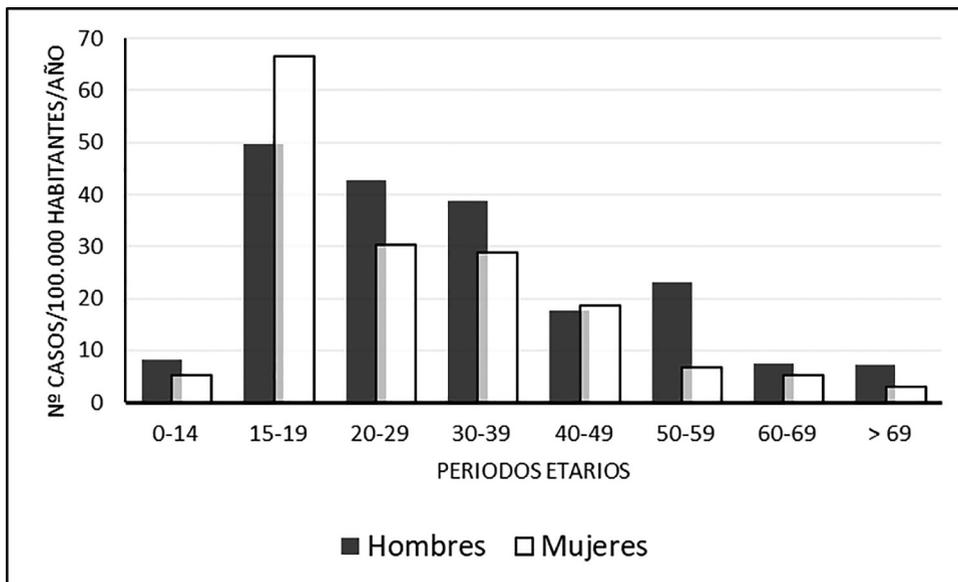


Figura 6. Incidencia (número de casos/100.000 habitantes/año) de absceso periamigdalino en hombres y mujeres, en función del periodo etario (2010-2019).

mayor en las mujeres (29,4 vs 25,7;  $p < 0,001$ ). (Tabla 2 y Figura 3). El 80% de pacientes ingresados tienen menos de 40 años de edad, tanto en hombres como en mujeres (Figura 5).

Absceso parafaríngeo (APF): La proporción de casos es de 6 APF/año en el primer periodo (2000-2015) y de 13 en el segundo (2016-2021) (Tabla 1).

La frecuencia media anual de los APF ingresados en el HCUV, es de 9-10 casos/año (Tablas 2 y 3). Son también más frecuentes en hombres, 110 casos (69%) que, en mujeres, 49 casos (31%), ratio de casos: 2,24 (Tabla 2 y Figura 2). En relación con la población general, los APF (con una incidencia de 3,4 casos/100.000 habitantes/año) son significativamente más prevalentes en los hombres (4,8/100.000 hombres/año) que en las mujeres (2/100.000 mujeres/año) ( $p < 0,001$ ), con un ratio de incidencia hombres/mujeres de 2,4 (Tabla 3 y Figura 7).

La edad media de los pacientes con APF es de  $47 \pm 20$  años, también algo superior en hombres ( $p 0,152$ ) (Tabla 2). El 81% de los casos de APF

acontece a partir de los 30 años (Tablas 2 y Figuras 2 y 5).

Las Tablas 4 y 5 muestran la distribución de los casos de AP, APF y A, en función de los meses del año y de las cuatro estaciones climáticas. La variabilidad máxima mensual en la A, es de un 12,5%; en el AP, de tan solo un 3,6% y en el APF de un 7%. Durante los años 2016 a 2021, los pacientes ingresados con amigdalitis aguda/recidivante, lo hicieron sobre todo en invierno, aunque el pico máximo fue en el mes de junio. Durante el periodo de 2000-2021, los ingresos por AP predominaron en verano/otoño, respecto a la primavera/invierno, con una mayor incidencia en los meses de julio, agosto y septiembre. Por su parte, durante este mismo periodo, el APF prevaleció en primavera, con picos máximos en abril y mayo.

Aunque en conjunto, los abscesos (AP+APF) son más frecuentes en verano/otoño, esta diferencia no muestra significación estadística ( $p 0,169$ ), como tampoco la de su discreto predominio en los meses de agosto y septiembre ( $p 0,426$ ) (Tablas 4 y 5).

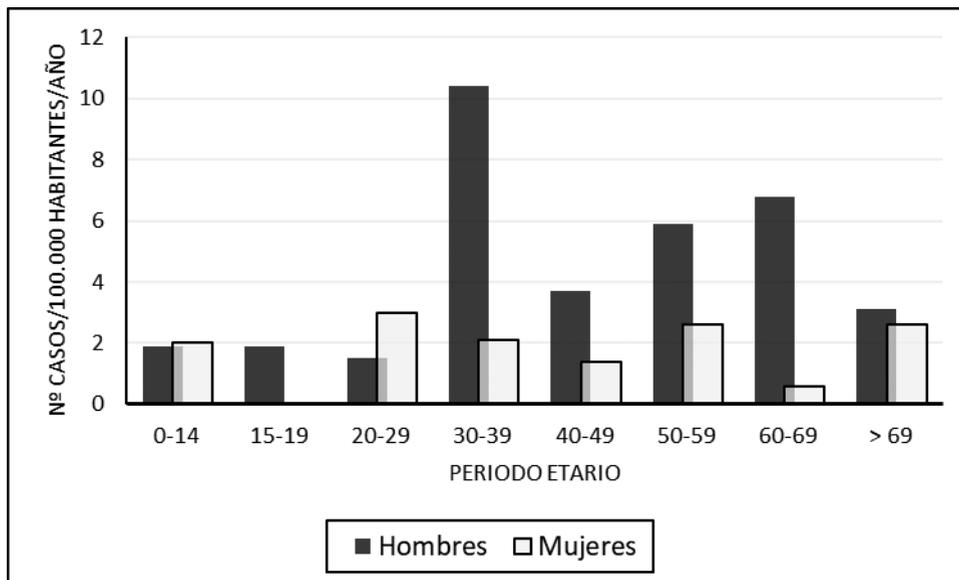


Figura 7. Incidencia (número de casos/100.000 habitantes/año) de absceso parafaríngeo en hombres y mujeres, en función del periodo etario (2010-2019).

ESTUDIO RETROSPECTIVO DE LA INCIDENCIA DE LOS ABSCESOS PERIAMIGDALINOS Y PARAFARÍNGEOS EN EL PERIODO 2000-2021

LOSADA-CAMPA J, BENITO-OREJAS JI, SAN MILLÁN\_GONZÁLEZ M ET AL.

Tabla 4. Distribución de los pacientes en función de los procesos (amigdalitis, absceso periamigdalino y absceso parafaríngeo) y del mes de su aparición. Total de abscesos = absceso periamigdalino + absceso parafaríngeo. En sombreado, los meses de mayor frecuencia de casos.

	Enero	Febrero	Marzo	Abril	Mayo	Junio	Julio	Agosto	Septiembre	Octubre	Noviembre	Diciembre	Total
Amigdalitis (6 años)	16 10%	23 14%	19 12%	7 4%	11 7%	27 16,5%	7 4%	10 6%	11 7%	6 4%	16 10%	9 5,5%	162 100%
Absceso periamigdalino (22 años)	89 8,7%	68 6,7%	83 8,2%	67 6,6%	86 8,4%	87 8,5%	92 9,0%	92 9,0%	104 10,2%	82 8,1%	86 8,4%	82 8,1%	1018 100%
Absceso faringocervical (22 años)	11 (5%)	16 (7,5%)	15 (7%)	24 (11%)	24 (11%)	20 (9,5%)	13 (6%)	22 (10%)	18 (8,5%)	18 (8,5%)	19 (9%)	14 (6,5%)	214 100%
Total de abscesos (22 años)	100 (8%)	84 (7%)	98 (8%)	91 (7,5%)	110 (9%)	107 (8,5%)	105 (8,5%)	114 (9%)	122 (10%)	100 (8%)	105 (8,5%)	96 (8%)	1232 100%
Absceso parafaríngeo (22 años)	8 5%	12 7,5%	10 6%	19 12%	18 11%	15 9,5%	11 7%	15 9,5%	11 7%	16 10%	15 9,5%	9 5,5%	159 100%

Tabla 5. Distribución del número de pacientes en función de los procesos (amigdalitis, absceso periamigdalino y absceso parafaríngeo) y de la estación climática. En sombreado, las estaciones con mayor número de casos.

	Primavera (1 marzo a 31 mayo)	Verano (1 junio a 31 agosto)	Otoño (1 septiembre a 30 noviembre)	Invierno (1 diciembre a 27/28 febrero)
Amigdalitis	37	44	33	48
Absceso periamigdalino	236	271	272	239
Absceso faringocervical	63	55	55	41
Total abscesos	299	326	327	280
Absceso parafaríngeo	47	41	42	29

## DISCUSIÓN

La población de estudio, con 1339 procesos, de los que 1018 son AP y 159 APF, es una de las más extensas publicadas [4, 13-15].

Absceso periamigdalino: Las tasas de incidencia del AP en el mundo, varían de 9 a 41 casos/100.000 habitantes/año [3-4, 6, 16]. Esta variabilidad puede depender de diferentes circunstancias, como la relación entre el número de casos (“n”) y el tiempo de duración del estudio, el posible tratamiento ambulatorio del AP y la adscripción

de la población a un determinado hospital. En nuestra ciudad hay 2 áreas de salud, cada una dependiente de un centro hospitalario y los pacientes que acuden de urgencia con AP son ingresados, por lo que pensamos que los datos que aportamos, se ajustan a la realidad. La media de población anual dependiente de nuestro hospital, durante el periodo considerado de 10 años (2010-2019) es de 265.903 habitantes [17], lo que determina una incidencia de AP de 18,3 casos/100.000 habitantes/año, intermedia a la de los grupos referidos

y la primera medida a gran escala, que nosotros conocemos, realizada en España.

Aunque la relación de género reflejada en la literatura es muy variada (remitimos al lector a la Tabla de autores publicada en la revisión sistemática -RS- sobre el AP) [18], la mayoría considera, que el AP es más frecuente en hombres [4, 7]. Los estudios con mayor población ofrecen cifras equiparables, con un porcentaje de AP hombres/mujeres, similar al obtenido por nosotros (59% / 41%; ratio:1,43) [4, 13-15]. Este predominio significativo ( $p < 0,001$ ) del AP en hombres, contrasta con la mayor prevalencia de amigdalitis aguda en las mujeres, lo que hace pensar que, a partir de un proceso amigdalagudo, quizá los hombres tengan mayor riesgo de AP [4]; aunque algunos investigadores consideran que el AP no siempre es una complicación de la amigdalitis aguda [6-9]. En definitiva, desconocemos a qué puede deberse esta diferencia de género y se enuncian como factores de riesgo una prevalencia más alta en los hombres de los hábitos de tabaco y alcohol [4, 12, 16, 19-20]. El tabaco asocia una mayor incidencia de enfermedad periodontal, disminuyendo la inmunidad mucosa y alterando la flora bacteriana local [20]. Pero después de ajustar las diferencias en relación al hábito tabáquico, los hombres todavía tienen una incidencia superior a las mujeres, por lo que el tabaco sólo explicaría en parte, el predominio masculino [4]. La toma excesiva de alcohol también puede facilitar una alteración de la inmunidad, que incrementa el riesgo de infección [20]. Incluso se apunta la posibilidad, de que, en las mujeres, se produzcan menos casos de AP, porque consulten antes a su médico de familia, iniciando el tratamiento más precozmente [4, 21]. Y aunque hay múltiples estudios, actualmente no hay evidencias que sugieran la existencia de diferentes patógenos entre ambos géneros [4].

La tasa de incidencia del AP está en estrecha dependencia con la edad [4, 7, 21]. Aunque de nuevo, los datos son dispares en la literatura (invitamos al lector a valorarlo en la Tabla de la RS sobre el AP) [18], la edad media de nuestros pacientes

(35,5 años), es similar a la de otros estudios con gran población [4, 13-14]; superior en los hombres ( $p < 0,005$ ), lo que algunos suponen que pudiera deberse a la influencia hormonal en la maduración del sistema inmunológico [16] (Tabla 2).

Hemos calculado la edad y el género, estratificándolos en función de la incidencia media anual de nuestra población desde el año 2010 al 2019 (Tabla 3 y Figura 1). Así como la ratio de género es muy similar, tanto si se estima por el número de casos, como por su incidencia, porque la población de hombres y de mujeres, es parecida; el porcentaje de afectación en función de la edad es muy variable según se considere la distribución, por el número de casos o por la incidencia (Figuras 1 y 6), de manera que de acuerdo con otros autores [4, 7, 16, 21], aunque el mayor número de casos de AP se concentra entre los 20 y 39 años, destacando en hombres (Tabla 2 y Figura 1); el pico de máxima incidencia se produce en los adolescentes y adultos jóvenes (15-19 años;  $p < 0,002$ ), con predominio no significativo ( $p < 0,317$ ) en las mujeres (Tabla 3 y Figura 6). También se considera que aproximadamente un 25% de los casos afecta a mayores de 40 años [6-7, 22]; que en nuestro trabajo alcanza el 33%.

En los estudios publicados no queda claro si las tasas de incidencia se influyen por el clima y no hay consenso sobre la variación estacional del AP [4, 21]. Varios autores expresan una asociación entre el AP y las condiciones climáticas, incluyendo los cambios estacionales, pero los resultados son inconsistentes (invitamos al lector a comprobar esta variabilidad en la Tabla de la RS realizada sobre el AP) [18]. Seyhun et al. (2018) en Turquía [23], encuentran una mayor prevalencia de AP en primavera/invierno (sin embargo, en nuestro estudio, el predominio es en verano/otoño). En general se piensa que la incidencia de AP es similar en todas las estaciones [2, 4, 6-7, 9, 14, 21, 24], pero Freire et al. (2017), consideran que es más frecuente en los meses de verano y descubren una correlación positiva entre las temperaturas mensuales y las tasas de incidencia de AP [1]. Según la literatura, los 3

meses con el menor número de casos de AP son junio, noviembre y diciembre (en nuestro análisis, son febrero y abril) y los 3 meses con mayor número fueron julio, marzo y enero [4] (aunque nuestras observaciones coinciden en el mes de julio, muestran una cantidad similar los meses de agosto y septiembre) (Tabla 4). La variación mensual observada en este trabajo es inferior al 4% en el AP y, por tanto, no estadísticamente significativa (Tabla 5). En conclusión, la tasa de incidencia de AP en nuestro medio, parece estable a lo largo del año. Sin embargo, si el AP es una complicación de la amigdalitis, en la que el estreptococo es el patógeno aislado con más frecuencia [14], sorprende que la amigdalitis estreptocócica sea estacional (Tabla 5) y el AP no tenga este predominio [21]. La amplia microbiota bacteriana asociada al AP, se modifica en función de la edad [14], pero también depende como hemos dicho, del historial del individuo, de la toma de antibióticos y quizá, en determinadas circunstancias, de las condiciones climáticas; lo que podría explicar esta asincronía [4, 14].

Absceso parafaríngeo: Los APF, también denominados abscesos profundos del cuello [25], se suelen originar de infecciones de las vías aerodigestivas superiores y su importancia radica en que pueden poner en peligro la vida del paciente [12].

A pesar de su impacto, hay pocos estudios epidemiológicos, la mayor parte, como el nuestro, basados en trabajos monocéntricos [26]. Destaca sobre todos, por ser una investigación nacional representativa de la población, el llevado a cabo por Yang et al. (2021), en la isla de Taiwan, sobre 5.779 pacientes [26].

La tasa de incidencia de APF es variable en la literatura (de 0,9 a 3,7) [26-27]. La nuestra es de 3,4 APF/100.000habitantes/año, similar a la del estudio de Yang et al. (2021) [26]. Las diferencias referidas pueden deberse a la inclusión de grupos dispares de edad, de distintas regiones geográficas, a la etnia y/o al estilo de vida [26]. Hay acuerdo en que esta tasa, es significativamente mayor en hombres ( $p<0,001$ ), siendo la registrada por nosotros de 2,4, similar a

las publicadas [26-28]. La edad media varía en la literatura de 44 a 52 años [26-28]. La de nuestros pacientes es de 47 años, algo superior en hombres, aunque sin significación estadística ( $p 0,152$ ). El pico de máxima incidencia recae en la población estudiada, entre los 30 y 39 años. Algunos autores han indicado que el envejecimiento puede ser un factor de riesgo del APF [28].

En la literatura se expresa un aumento de la incidencia general de APF en los últimos 15 años, que nosotros también hemos registrado entre el primer y segundo periodo de estudio [26-29]. El motivo se desconoce, pero algunos lo achacan, al descenso en este tiempo del número de amigdalectomías, a la menor prescripción de antibióticos y al incremento de la virulencia en los gérmenes patógenos, aunque posiblemente el origen sea multifactorial [26, 29].

Los casos que hemos diagnosticado de APF predominan en los meses de abril/mayo y en primavera, pero la diferencia mensual del 7% no es significativa y no hemos encontrado otros estudios con los que poder comparar estos resultados.

El motivo que impulsó este trabajo intentaba comprobar, si los abscesos faríngeos (AP y APF) eran más frecuentes en verano y aunque los resultados numéricos son superiores en los meses de agosto y septiembre, las diferencias no son significativas, por lo que seguramente nuestra sospecha se viera influida por otras circunstancias. La reducción de personal en época vacacional (julio-septiembre), con la sobrecarga laboral que conlleva, podría ser uno de los motivos que sobredimensionaran nuestra apreciación.

Limitaciones: estudio retrospectivo y monocéntrico, lo que condiciona el que los resultados se puedan hacer extensivos a una población más general. No hemos analizado los datos clínicos, respecto a exploración y procedimientos diagnósticos, características del absceso, antecedentes familiares y personales, estilo de vida, dieta, consumo de tabaco y alcohol, que podrían influir en la incidencia, aunque nuestros datos están en general de

acuerdo, con las publicaciones de mayor población, por lo que no creemos que la nuestra tenga características particulares. Aunque consideramos fundamental expresar la codificación utilizada en el registro, para realizar estudios comparativos y evitar falsas estimaciones, el diagnóstico se ha llevado a cabo por diferentes especialistas, pudiendo facilitar la posibilidad de error o confusión.

## CONCLUSIONES

La edad media de los pacientes ingresados con amigdalitis aguda o recidivante es de 28 años y predomina en las mujeres.

El AP es la complicación más frecuente de la amigdalitis aguda. En el adulto, tiene mayor incidencia en hombres (ratio 1,44) y en la infancia es discretamente más prevalente en las niñas. La edad media es de 36 años y su incidencia en nuestro medio, es de 18,3 casos/100.000 habitantes/año.

El APF predomina en hombres (ratio 2,6), con una edad media de 47 años y una tasa de incidencia de 3,8 casos/100.000 habitantes/año.

Aunque el número de amigdalitis ingresadas es mayor en invierno y el de AP y APF en verano/otoño, no encontramos una clara relación de estos procesos con la climatología.

## BIBLIOGRAFÍA

- Freire GSM, Dos Santos JHZ, Rolón PA, Pinheiro GB, Sampaio ALL. Peritonsillar abscess: epidemiology and relationship with climate variations. *J Laryngol Otol.* 2017;131(7):627-30. DOI: 10.1017/S0022215117000895. PMID: 28462728.
- Galioto NJ. Peritonsillar Abscess. *Am Fam Physician.* 2017;95(8):501-6. PMID: 28409615.
- Hanna BC, McMullan R, Gallagher G, Hedderwick S. The epidemiology of peritonsillar abscess disease in Northern Ireland. *J Infect.* 2006;52(4):247-53. DOI: 10.1016/j.jinf.2005.07.002. PMID: 16125782.
- Klug TE. Peritonsillar abscess: clinical aspects of microbiology, risk factors, and the association with parapharyngeal abscess. *Dan Med J.* 2017;64(3):B5333. PMID: 28260599.
- Blair AB, Booth R, Baugh R. A unifying theory of tonsillitis, intratonsillar abscess and peritonsillar abscess. *Am J Otolaryngol.* 2015;36(4):517-20. DOI: 10.1016/j.amjoto.2015.03.002. PMID: 25865201.
- Marom T, Cinamon U, Itskoviz D, Roth Y. Changing trends of peritonsillar abscess. *Am J Otolaryngol.* 2010;31(3):162-7. DOI: 10.1016/j.amjoto.2008.12.003. PMID: 20015734.
- Mazur E, Czerwińska E, Korona-Główniak I, Grochowalska A, Koziol-Montewka M. Epidemiology, clinical history and microbiology of peritonsillar abscess. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis.* 2015;34(3):549-54. DOI: 10.1007/s10096-014-2260-2. PMID: 25322910.
- Klug TE, Rusan M, Fuursted K, Ovesen T. Peritonsillar Abscess: Complication of Acute Tonsillitis or Weber's Glands Infection? *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2016;155(2):199-207. DOI: 10.1177/0194599816639551. PMID: 27026737.
- Kordeluk S, Novack L, Puterman M, Kraus M, Joshua BZ. Relation between peritonsillar infection and acute tonsillitis: myth or reality? *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2011;145(6):940-5. DOI: 10.1177/0194599811415802. PMID: 21810775.
- Palomar Asenjo V, Borràs Perera M, Ruiz Giner A, Palomar García V. Infecciones del espacio periamigdalares. Manejo ambulatorio. *An Otorrinolaringol Ibero Am.* 2006;33(4):399-407. DOI: 10.1016/S2255-8777(15)30168-1.
- Costales-Marcos M, López-Álvarez F, Núñez-Batalla F, Moreno-Galindo C, Alvarez Marcos C, Llorente-Pendás JL. Infecciones periamigdalinas: estudio prospectivo de 100 casos consecutivos. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2012;63(3):212-7. DOI: 10.1016/j.otorri.2011.07.001.
- Thapar A, Tassone P, Bhat N, Pfliegerer A. Parapharyngeal abscess: a life-threatening complication of quinsy. *Clin Anat.* 2008;21(1):23-6. DOI: 10.1002/ca.20569. PMID: 18058899.
- Johnston J, Stretton M, Mahadevan M, Douglas RG. Peritonsillar abscess: A retrospective case series of 1773 patients. *Clin Otolaryngol.*

- 2018;43(3):940-4. DOI: 10.1111/coa.13070. PMID: 29377585.
14. Slouka D, Hanakova J, Kostlivy T, Skopek P, Kubec V, Babuska V, et al. Epidemiological and Microbiological Aspects of the Peritonsillar Abscess. *Int J Environ Res Public Health*. 2020;17(11):4020. DOI: 10.3390/ijerph17114020. PMID: 32516939.
  15. Kim SY, Kong IG, Min C, Choi HG. Association of Air Pollution With Increased Risk of Peritonsillar Abscess Formation. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2019;145(6):530-5. DOI: 10.1001/jamaoto.2019.0742. PMID: 31021373.
  16. Risberg S, Engfeldt P, Hugosson S. Incidence of peritonsillar abscess and relationship to age and gender: retrospective study. *Scand J Infect Dis*. 2008;40(10):792-6. DOI: 10.1080/00365540802195226. PMID: 18609198.
  17. Población de tarjeta sanitaria de Castilla y León. SACYL. Junta de Castilla y León. Valladolid Este [Internet]. [citado 16 jul 2023]. Disponible en: <https://www.saludcastillayleon.es/transparencia/es/transparencia/sanidad-cifras/informes-estadisticos/ordenacion-alfabetica/poblacion-tarjeta-sanitaria>
  18. Losada-Campa J, Benito-Orejás JI, San Millán-González M, González-Sosto M, Muñoz-Moreno MF, Santos-Pérez J. Revisión sistemática sobre la influencia de la edad, el género y las variaciones estacionales en el absceso periamigdalino. *Rev ORL*. 15 de mayo de 2023:e31259. DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.31259>
  19. Klug TE, Rusan M, Clemmensen KK, Fuursted K, Ovesen T. Smoking promotes peritonsillar abscess. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2013;270(12):3163-7. DOI: 10.1007/s00405-013-2474-4. PMID: 23568043.
  20. Kim SY, Lim H, Choi HG. Smoking and Alcohol Consumption Are Associated With the Increased Risk of Peritonsillar Abscess. *Laryngoscope*. 2020;130(12):2833-8. DOI: 10.1002/lary.28510. PMID: 32040204.
  21. Klug TE. Incidence and microbiology of peritonsillar abscess: the influence of season, age, and gender. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis*. 2014;33(7):1163-7. DOI: 10.1007/s10096-014-2052-8. PMID: 24474247.
  22. Matsuda A, Tanaka H, Kanaya T, Kamata K, Hasegawa M. Peritonsillar abscess: a study of 724 cases in Japan. *Ear Nose Throat J*. 2002;81(6):384-9. PMID: 12092281.
  23. Seyhun N, Çalış ZAB, Ekici M, Turgut S. Epidemiology and Clinical Features of Peritonsillar Abscess: Is It Related to Seasonal Variations? *Turk Arch Otorhinolaryngol*. 2018;56(4):221-5. DOI: 10.5152/tao.2018.3362. PMID: 30701118.
  24. Ong YK, Goh YH, Lee YL. Peritonsillar infections: local experience. *Singapore Med J*. 2004;45(3):105-9. PMID: 15029410.
  25. Woods CR, Cash ED, Smith AM, Smith MJ, Myers JA, Espinosa CM, et al. Retropharyngeal and Parapharyngeal Abscesses Among Children and Adolescents in the United States: Epidemiology and Management Trends, 2003-2012. *J Pediatric Infect Dis Soc*. 2016;5(3):259-68. DOI: 10.1093/jpids/piv010. PMID: 26407249.
  26. Yang TH, Xirasagar S, Cheng YF, Wu CS, Kao YW, Lin HC. A Nationwide Population-Based Study on the Incidence of Parapharyngeal and Retropharyngeal Abscess-A 10-Year Study. *Int J Environ Res Public Health*. 2021;18(3):1049. DOI: 10.3390/ijerph18031049. PMID: 33504039.
  27. Klug TE, Fischer AS, Antonsen C, Rusan M, Eskildsen H, Ovesen T. Parapharyngeal abscess is frequently associated with concomitant peritonsillar abscess. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2014;271(6):1701-7. DOI: 10.1007/s00405-013-2667-x. PMID: 23982668.
  28. Qureshi HA, Ference EH, Tan BK, Chandra RK, Kern RC, Smith SS. National trends in retropharyngeal abscess among adult inpatients with peritonsillar abscess. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2015;152(4):661-6. DOI: 10.1177/0194599814568286. PMID: 25605696.
  29. Lau AS, Upile NS, Wilkie MD, Leong SC, Swift AC. The rising rate of admissions for tonsillitis and neck space abscesses in England, 1991-2011. *Ann R Coll Surg Engl*. 2014;96(4):307-10. DOI: 10.1308/003588414X13946184900363. PMID: 24780025.



## EVOLUCIÓN DE LA PRODUCCIÓN CIENTÍFICA GENERADA SOBRE LA DEHISCENCIA DEL CANAL SEMICIRCULAR POSTERIOR

### *Evolution of the scientific production generated on posterior semicircular canal dehiscence*

Ana Isabel CISNEROS-GIMENO ; Alberto GARCÍA-BARRIOS; Guillermo ESCUER-ALBERO; Jesús OBON-NOGUÉS; Jaime WHYTE-OROZCO 

*Departamento de Anatomía e Histología Humanas, Universidad de Zaragoza, Zaragoza, España.*

*Correspondencia: [agarciab@unizar.es](mailto:agarciab@unizar.es)*

Fecha de recepción: 6 de febrero de 2023

Fecha de aceptación: 11 de agosto de 2023

Fecha de publicación: 22 de septiembre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 18 de diciembre de 2023

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses

Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes

Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO)

Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional

Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

**RESUMEN:** Introducción: La dehiscencia del canal semicircular posterior es una vestibulopatía rara, de baja prevalencia y cuya sintomatología se explica por el fenómeno de la tercera ventana. No fue hasta 2003 cuando Krombach describe los primeros casos. Objetivo: Evaluar mediante análisis bibliométrico y temático la producción científica sobre trabajos de dehiscencia del canal semicircular posterior (DCSP) y su incidencia a nivel de la comunidad científica mediante una revisión bibliográfica. Método: Se realiza búsqueda, revisión, selección y estudio a partir de ítems relacionados con DCSP indexados en la base de datos Pubmed, Web of Science, Alcorze y Scopus, desde el año 2003 hasta 2019, seleccionando 90 artículos. Resultados: Los 90 artículos han sido publicados en un total de 48 revistas, siendo 52% originales, 38% casos clínicos, 9% revisiones y 1% conferencias. La temática predominante fue la clínica (32%) y la etiología (27%). Los artículos estaban escritos en ocho idiomas diferentes, predominando el inglés (85%), y siendo Estados Unidos el país con más publicaciones (42%). Los índices de actividad institucional y autoría son bajos. La calidad de las revistas es alta, ya que el 70% de las publicaciones se encontraban en los cuartiles Q1-Q2. El área principal es Otorrinolaringología, con 66 trabajos, seguida por Radiología con 14.

El número de descargas fue 6958, con una media de 77,31 por artículo, y las citas fueron 1193, equivalente a una media de 13,25. Conclusión: Los datos bibliométricos revelan cómo los trabajos sobre dehiscencia del canal semicircular posterior representan una pequeña producción científica, el tema está en fase de crecimiento sostenido, los índices de autoría, institucionalidad y colaboración son bajos y las publicaciones se concentran en pocas revistas, con una orientación claramente anglófona, pero de alta calidad e importante visualización.

**PALABRAS CLAVE:** dehiscencia del canal semicircular posterior; análisis bibliométricos; factor de impacto; calidad científica.

**SUMMARY:** Introduction: The dehiscence of the posterior semicircular canal is a rare vestibulopathy, of low prevalence and whose symptomatology is explained by the phenomenon of the third window. It was not until 2003 that Krombach described the first cases. Objective: Evaluate the scientific production about the dehiscence of the posterior semicircular canal (DCSP) by a bibliometric and thematic analysis and observe its incidence at the scientific community level. Method: A search with subsequent review, selection and study was carried out using items related to DCSP indexed in the Pubmed, Web of Science, Alcorze and Scopus databases, from 2003 to 2019, selecting a total of 90 articles. Results: The 90 articles have been published in a total of 48 magazines. 52% were originals, 38% clinical cases, 9% reviews and 1% conferences. Clinical (32%) and etiology (27%) were the main themes. The articles were written in eight different languages, predominantly English (85%), and the United States has been the country with the highest number of publications (42%). Institutional activity and authorship rates are low. The quality of the journals is high: 70% of the publications were in the Q1-Q2 quartiles. The main area corresponds to otorhinolaryngology, with a total of 66 works, followed by radiology (14). The total number of downloads was 6958, with an average of 77.31 per article and the total citations were 1193, 13.25 per article. Conclusions: The bibliometric results reveal how the works on dehiscence of the posterior semicircular canal present a small scientific production, the subject is in a phase of sustained growth, the authorship, institutional and collaboration index are low, the publications are concentrated in a few journals of high quality and important visualization, with a clearly anglophone orientation.

**KEYWORDS:** posterior semicircular canal dehiscence; bibliometric analysis; impact factor; scientific quality.

## INTRODUCCIÓN

Los estudios sobre las características bibliográficas de los artículos de un determinado tema nos permiten obtener datos útiles y de interés acerca de las tipologías propias de las publicaciones del tema en cuestión, así como la influencia de este en la comunidad científica. Con dicho objetivo hemos efectuado el análisis de la producción científica de las publicaciones sobre el tema «dehiscencia del canal semicircular posterior» (DCSP), utilizando para ello los indicadores recomendados y utilizados en la mayoría de los estudios bibliométricos publicados [1].

No fue hasta el año 2003 cuando Krombach et al [2] describieron los primeros casos específicos de dehiscencia en el canal semicircular posterior donde, como en el resto de las dehiscencias de otros canales semicirculares, se produce por la ausencia de cobertura ósea sobre la cubierta de canal semicircular ya sea hacia la fosa cerebral posterior o a hacia el golfo yugular. Estas dehiscencias constituyen unas vestibulopatías raras, de baja prevalencia [3] y cuya clínica se apoya en la teoría de la tercera ventana. Al existir una nueva abertura en el oído interno, parte de la energía mecánica proveniente de la vibración de la ventana oval, tras

transmitirse por la cadena de huesecillos, provoca en el canal semicircular posterior un movimiento de la perilinfa sobre la cresta ampular, originando así síntomas vestibulares como el vértigo inducido por ruido. Al perderse parte de la energía mecánica hacia el conducto semicircular dehiscente, la estimulación de la cóclea es menor dando lugar a una hipoacusia, a la que se asocia percepción aumentada de ciertos somatotonidos.

El objetivo del presente trabajo se centra en evaluar mediante análisis bibliométrico y temático la producción científica sobre trabajos de dehiscencia del canal semicircular posterior (DCSP) y su incidencia a nivel de la comunidad científica mediante una revisión bibliográfica.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una revisión de la bibliografía para realizar un estudio descriptivo transversal de la producción científica sobre la dehiscencia del canal semicircular posterior, desde febrero de 2003 hasta diciembre de 2019.

Los artículos incluidos fueron extraídos de las bases de datos Medline (Pubmed), Web of Science, Scopus y Alcorze según el siguiente diagrama (Figura 1).

Las palabras clave utilizadas en la búsqueda en estas bases fueron: posterior canal semicircular dehiscence, *posterior semicircular canal dehiscence syndrome* y dehiscencia del canal semicircular posterior (base con artículos en idioma español).

Una vez llevado a cabo la revisión bibliográfica y leídos los artículos, se han seleccionado 90 de entre todas las diferentes bases.

Las causas de exclusión fueron las siguientes:

- Aparecer publicados antes de 2003 (año de publicación del primer trabajo sobre esta patología).
- Encontrarse repetidos o ser el mismo en diferentes idiomas (inglés y español, o inglés y alemán).

- Citar solamente la dehiscencia como diagnóstico diferencial de otras patologías vestibulares y otológicas.
- Tratar sobre dehiscencias de los otros canales semicirculares (superior y lateral), aunque aparecieran al utilizar las palabras claves seleccionadas.
- No tratar sobre dehiscencia, aunque el tema fuera de otros aspectos relacionado con el canal semicircular posterior (literatura sobre vértigos paroxísticos, hipoacusia...).

Con los manuscritos seleccionados creamos una base de datos en Excel, en la que se recogen de cada uno de los artículos: los autores, año de publicación, revista, tema de la revista, país, tipo y tema del trabajo, número de autores, la institución, idioma, si tenían o no DOI, si eran o no de acceso gratuito, si era necesario pagar para publicar en esa revista, así como los indicadores de impacto de las revistas que han publicado según el *Journal Citation Reports* (JCR) y el *Scimago Journal Rank* (SJR). Estos indicadores son cuantitativos y miden cuánto impacto ha tenido una revista en un año en concreto, utilizando para clasificarlas sus cuartiles (Q1-Q4).

Hemos considerado como revista de alto impacto, aquella que se encuentra en el primer cuartil, medio impacto cuando está en el segundo, y bajo si se encuentra en el tercer o cuarto cuartil.

Cuando en la misma revista se abarca más de un área de conocimiento y en cada una de ellas ocupa una posición diferente en los cuartiles del JCR, hemos aplicado el *ESI Total Citations*. Todas aquellas revistas que no tenían impacto JCR o SJR, aunque su relevancia era mínima, también se analizaron y se buscó su ISSN para comprobar que no tenían ningún factor de impacto.

Tras ordenar la base de datos, se analizaron las variables de forma individual. En los apartados en que era posible, y aportaba alguna información de valor, se compararon dos variables diferentes.

Los indicadores incluidos en el estudio fueron los siguientes:

EVOLUCIÓN DE LA PRODUCCIÓN CIENTÍFICA GENERADA SOBRE LA DEHISCENCIA DEL  
CANAL SEMICIRCULAR POSTERIOR

CISNEROS-GIMENO AI, GARCÍA-BARRIOS A, ESCUER-ALBERO G ET AL.

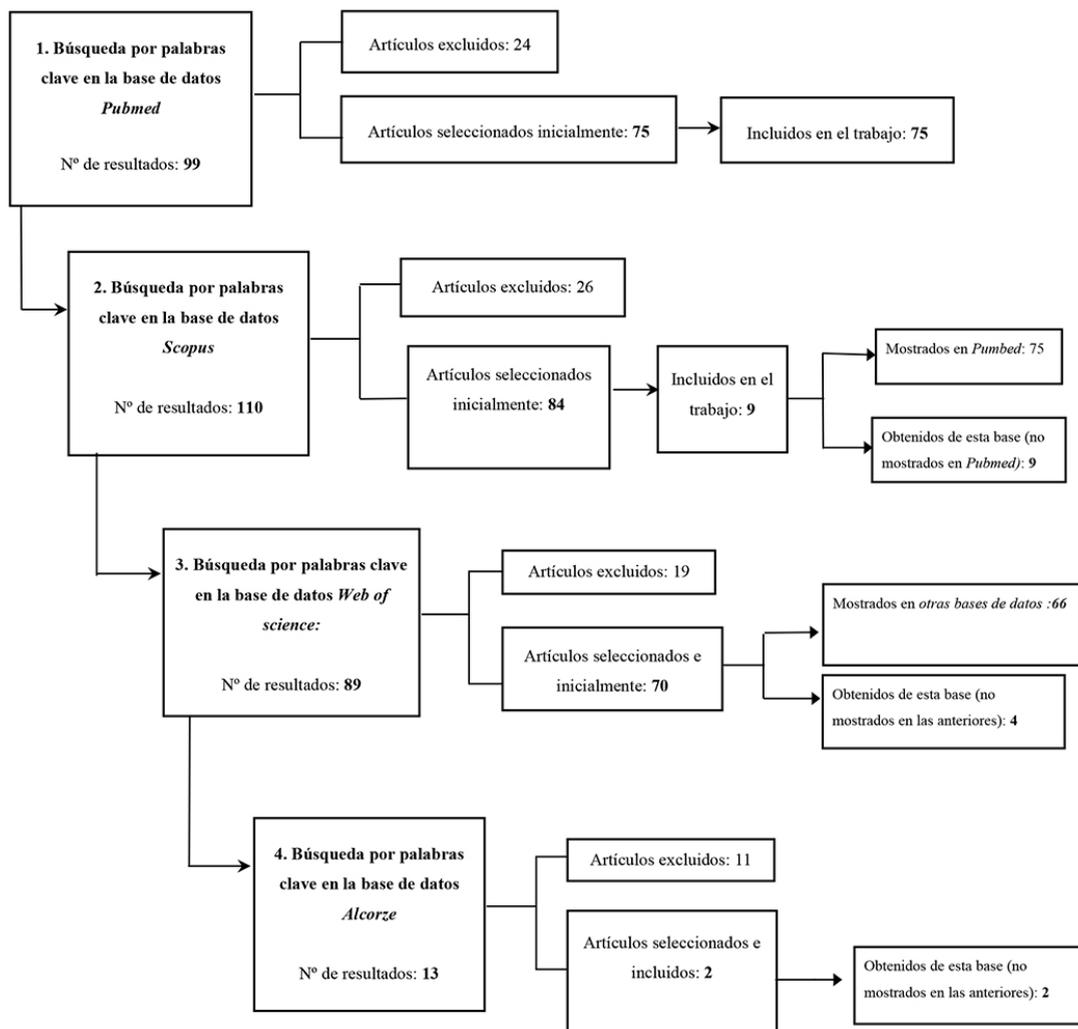


Figura 1. Diagrama utilizado para inclusión de artículos.

- Producción científica, número de artículos en las diferentes bases.
- Tipo de documento (original, revisión, caso clínico...).
- Idioma de publicación del artículo.
- Procedencia geográfica de los artículos.
- Año de publicación del artículo.
- Número de autores por artículo e índice de colaboración (cociente entre el número de autores que firman y el número de trabajos).
- Filiación institucional del artículo.
- Índice de actividad: porcentaje de producción.

- Índice de transitoriedad: porcentaje de autores que solo han publicado un trabajo sobre un tema.
- Índice de coautoría (número de firmas por trabajo): cociente entre el número de autores y el número de artículos.
- Índice de colaboración institucional: cociente entre el número de centros firmantes y el número de artículos.
- Análisis de la temática del artículo: clínica, etiología, diagnóstico, prevalencia, tratamiento quirúrgico y experimental. La clasificación temática se ha llevado a cabo por cada uno de los autores firmantes de este manuscrito; cada uno analizaba por separado la temática y luego se comparaba. Cuando surgía alguna discrepancia a la hora de catalogar se sometía a discusión, y se acordaba el apartado donde había que clasificarlo.
- Análisis del área de las revistas donde han sido publicados los artículos: otorrinolaringología, radiología, neurología, neurocirugía, medicina y morfología. La asignación del área se realizó de la misma forma que la asignación temática descrita en el apartado anterior.
- Ley de productividad sesgada de Lotka. Esta ley analiza la producción de un científico según el número de sus publicaciones, y los divide en tres niveles (pequeños productores con sólo uno o dos trabajos publicados, medianos productores entre 3 y 9 trabajos, y grandes productores con 10 o más trabajos).
- Ley de dispersión o índice de Bradford. Esta ley nos permite averiguar la distribución y concentración de los diversos documentos en diferentes revistas que publican sobre un mismo tema. Este índice distingue un núcleo específico o principal que agrupa las revistas con mayor número de artículos sobre un tema, y varias zonas que contienen aproximadamente el mismo número de artículos que el núcleo y cuya concentración es menor, es decir, en el centro se concentran las revistas que más publicaciones sobre el tema tienen.
- Identificación del artículo mediante código DOI (Digital Object Identifier).
- Enlace y acceso al documento (gratuito o de pago).
- Impacto de la revista según *Journal Citation Reports, ESI (Total Citations Essential Science Indicators)* publicado por la editorial Thomson Reuters, y *Scimago Journal Rank* publicado por la editorial Elsevier.
- Ley de crecimiento de Solla-Price. Estudia el ritmo del crecimiento de la producción científica comparando los datos de dos periodos completos de 10 años, distinguiendo 4 fases: 1 o de inicio del tema, fase 2 de crecimiento exponencial, fase 3 de crecimiento ralentizado, y fase 4 de colapso del tema.
- Número de citaciones por artículo, extraído de Scopus.
- Número de descargas por artículo, obtenido utilizando Plumx Metrics.
- H-Index: un tema tiene un índice h cuando el artículo es citado h veces entre todos los artículos citados.
- i10-Index: índice de publicaciones con al menos 10 citas.
- Índice de *Field Weighted Citation (FWC)* mide el impacto de citas ponderadas en un campo y como este es citado en comparación con los documentos pertenecientes a ese campo. Un valor por encima de 1 significa que el documento se cita más veces de lo esperado para documentos de ese campo. Se obtiene dividiendo las citas del documento que nos interesa entre la media de citas recibidas en documentos de ese campo en los últimos tres años.

## RESULTADOS

### TRABAJOS EN LAS DISTINTAS BASES DE DATOS

Se hallaron un total de 311 manuscritos, 99 en Pubmed, 89 en *Web of Science*, 110 en Scopus y 13 en Alcorze (utilizando exclusivamente palabras claves en español).

Fueron rechazados, por no cumplir con los requisitos establecidos, 24 trabajos de Pubmed (24,2%), 19 de *Web of Science* (21,3%), 26 de Scopus (23,6%) y 11 de Alcorze (84,6%).

Del total de manuscritos de cada base, Pubmed ha aportado 75 artículos (75,7%), *Web of Science* 70 (78,6%), Scopus 84 (76,4%) y Alcorze 2 (15,4%).

Una vez realizada la exclusión se seleccionaron 90 manuscritos para analizar.

### PRODUCCIÓN CIENTÍFICA A LO LARGO DEL PERIODO 2003-2019

La evolución de las publicaciones presentó una distribución variable, ajustándose a un modelo lineal irregular, que alterna picos con años de mayor producción con otros de menor (Figura 2).

### TIPOLOGÍA DOCUMENTAL

El tipo de documento más frecuente fue el artículo original con 47 documentos (52,2%), seguido

por los casos clínicos 34 (37,8%), 8 las revisiones (8,9%) y 1 conferencia (1,1%).

### PROCEDENCIA GEOGRÁFICA

Se han registrado documentos de 24 nacionalidades diferentes, siendo América del Norte, donde mayor cantidad de manuscritos hemos localizado con 38 referencias (42,2%). Le siguen Europa con 33 (36,6%), Asia con 14 (15,5%), Oceanía con 4 artículos (4,4%) y África con sólo uno escrito, en Egipto (1,1%). En cambio, no hemos observado ninguna publicación en Centro América y Sudamérica.

### IDIOMA

Los artículos estaban escritos en ocho idiomas diferentes 77 en inglés, 4 en español, 3 en alemán, 2 en francés, y por último 1 manuscrito fue escrito respectivamente en chino, danés, polaco y ruso.

### FILIACIÓN INSTITUCIONAL

Se identificaron trabajos publicados en 77 instituciones distintas. Aplicando el índice de Lotka se observa cómo el tema presenta un bajo índice institucional. 68 instituciones (88,3%) fueron bajas productoras (uno o dos trabajos publicados), 8 medianas (3 a 10) y solo la Harvard Medical

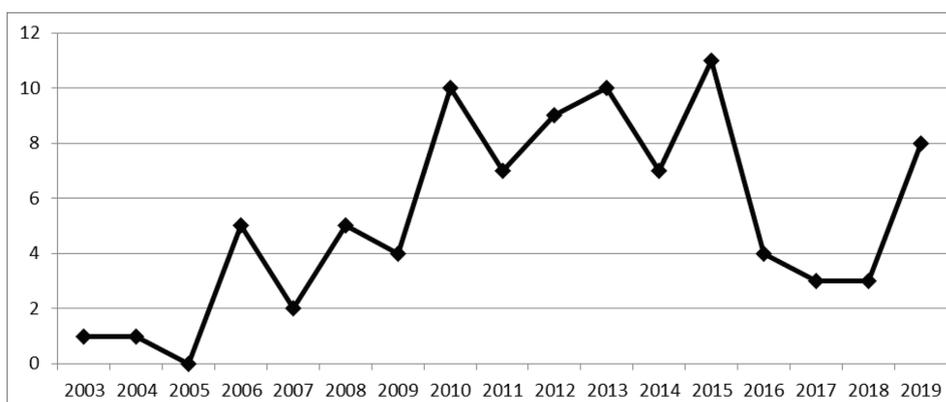


Figura 2. Número de publicaciones por año.

School y sus correspondientes hospitales asociados fue gran producto (más de 10). El cociente entre instituciones y número de trabajos fue también bajo (0,85).

De los 90 trabajos, 76 se realizaron en un único centro y 14 fueron multicéntricos, por lo que al analizar la colaboración entre centros observamos que fue baja.

#### AUTORÍA

Se han contabilizado un total de 406 autores, aunque hay que resaltar que hay autores que firman más de un manuscrito (Figura 3).

La evolución del número de autores que firman un manuscrito a lo largo de los años se mantiene constante, con una mediana de 5 y el índice de coautoría es de 4,5.

El índice de actividad de los diferentes autores es bajo (0,77), mientras que el índice de transitoriedad fue alto (62,5%): estos índices confirman que hay muchos autores han publicado sólo un artículo sobre el tema.

Al aplicar el índice de Lotka este confirma la baja productividad de los diferentes autores ya que

no hemos observado ningún autor que pueda ser considerado gran productor, y tan sólo 22 eran medianos productores.

#### REVISTAS

Los trabajos sobre dehiscencia del canal semicircular posterior están publicados en 48 revistas diferentes.

Al analizar su concentración, 4 revistas (28 artículos) componían el núcleo principal de Bradford (Otology & Neurotology con 14, The Laryngoscope con 6, International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology con 4 y Archives of Otolaryngology-Head and Neck Surgery con 4). La zona 1 estaba constituida por 12 revistas con 30 trabajos y la zona 2 con un total de 32 revistas con 32 trabajos.

La distribución por área fue: Otorrinolaringología con un total de 66, Radiología con 14, Neurología y Neurocirugía con 3 cada una, Medicina y Ciencias Morfológicas con 2 respectivamente.

Estas revistas han sido publicadas por 23 editoriales diferentes. Siendo Springer con 7 y Elsevier con 5, las editoriales que más revistas diferentes publican.

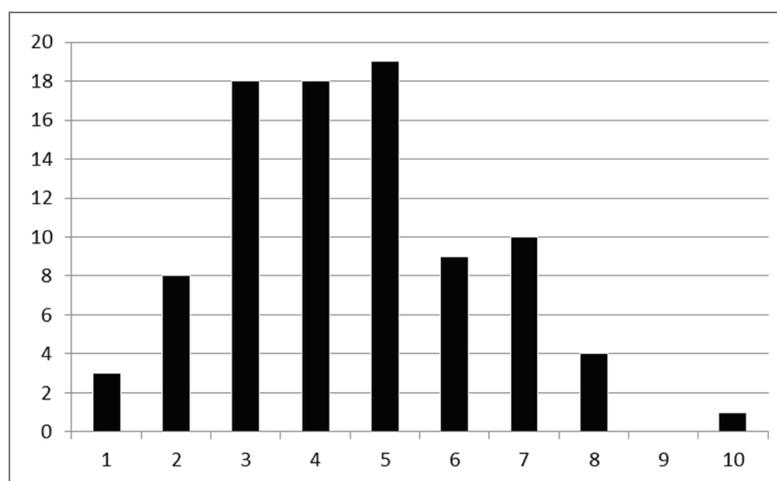


Figura 3. Número de publicaciones por número de autores.

De las 90 revistas, en 75 se podía publicar de forma gratuita (83,3%), mientras que en 13 eran de pago (14,4%); 2 no pudieron ser localizadas, ya que eran de China y Rusia y sus normas de publicación no estaban en ningún otro idioma.

#### ACCESO AL DOCUMENTO PRIMARIO

En relación con el enlace del texto completo, se vio como a 29 se podían acceder de forma gratuita, a 55 mediante diferentes medios de pago y en 6 no se encontró enlace válido, así que no se pudo averiguar de qué tipo eran.

Se comprobó cómo 82 publicaciones (91,1%) estaban identificadas mediante DOI y 8 (8,9%) no lo presentaban.

#### CLASIFICACIÓN TEMÁTICA

La temática sobre la cual versó un mayor número de publicaciones fue la clínica, con un 32,2% del total (29 trabajos). El segundo tema en número fue la etiología con un 26,7% del total (24 trabajos). El resto de los temas lo completaban el

diagnóstico (15 artículos; 16,7%), la prevalencia (11; 12,2%) y el tratamiento quirúrgico (10; 11,1%), ambos tres con similar importancia. Destaca un solo trabajo experimental sobre la dehiscencia realizado en animales (Figura 4).

#### INDICIOS DE CALIDAD DE LAS REVISTAS

De los 90 trabajos analizados, 73 (81,1%) presentan un índice de impacto *Journal Citations Reports* (JCR) distribuidos de la siguiente manera: Q1 13 (14,4%), Q2 30 (33,3%), Q3 15 (16,7%), Q4 15 (16,7%), y 17 (18,9%) no tenían impacto.

En el índice *Scimago Journal Rank* (SJR) aparecen 86 trabajos distribuidos de la siguiente manera: Q1 41 (45,5%), Q2 23 (25,5%), Q3 16 (17,8%), Q4 6 (6,7%); solamente 4 trabajos (4,4%) no presentaron ningún indicio de calidad.

Al aplicar el índice ESI se observaron los siguientes cambios: el número de revistas Q1 subió a 49 (54,4%), el número de revistas Q2 descendió a 14 (15,6%), las Q3 también mostraron un descenso quedándose en 6 (6,7%) y Q4 4 (4,4%) (Figura 5).

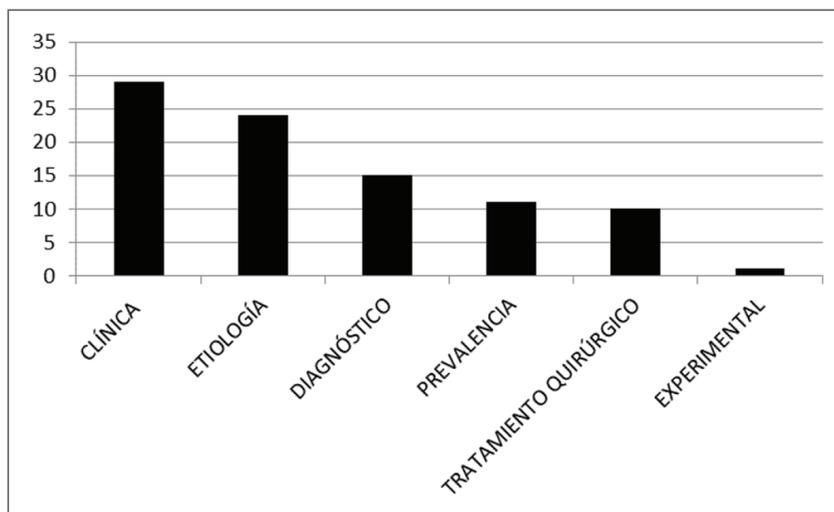


Figura 4. Número de publicaciones por temática.

EVOLUCIÓN DE LA PRODUCCIÓN CIENTÍFICA GENERADA SOBRE LA DEHISCENCIA DEL  
CANAL SEMICIRCULAR POSTERIOR

CISNEROS-GIMENO AI, GARCÍA-BARRIOS A, ESCUER-ALBERO G ET AL.

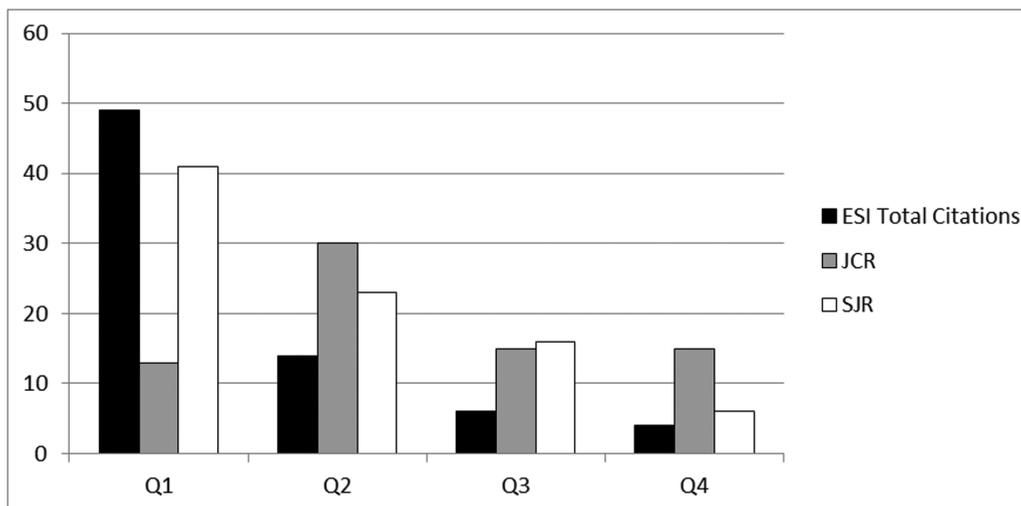


Figura 5. Comparativa de cuartiles en ESI, JCR y SJR.

#### ESTADO ACTUAL DEL TEMA

El índice de Solla-Prince nos indica como los trabajos sobre dehiscencia de canal semicircular posterior, aunque únicamente han pasado 16 años desde la primera publicación y se necesitan períodos de 10 años para analizarlo, se encuentran todavía en tendencia hacia la fase 2 ya que en el periodo 2003-2012 se publicaron un total de 44 manuscritos y en el de 2013 al 2019 un total de 46, faltando de contabilizar los trabajos de 2020, 2021 y 2022.

Cuando analizamos periodos más cortos, de cinco en cinco años, el crecimiento es sostenido: 9 trabajos fueron publicados de 2003 a 2007, crecieron a 35 de 2008 a 2012 y se mantuvieron en 35 de 2013 a 2017. Entre los años 2018 y 2019 hay un total de 11.

#### VISIBILIDAD DE LOS TRABAJOS

Las citas totales han sido de 1193, lo que equivale a una media de 13,25 citas por artículo. Se observó como 83 de los manuscritos fueron

citados (92,2 %), y sólo 7 (7,8%) no recibieron ninguna cita.

Dos artículos son clasificados como clásicos, al haber tenido más de cien citas: Merchant y Rosowki 2008 [4] con un total de 159 citas, y Zhou 2007 [5] con 117 citas.

Tras comprobar el FWC (Índice de Field Weighted Citation), 25 de los artículos tuvieron más citas de las esperadas para su tema ( $FWC > 1$ ).

Cuando hemos calculado el h-índice de los trabajos citados, este es 18, y el i10-índice es 36.

Las descargas totales de los artículos seleccionados en PlumX Metrics fueron 6958, con una media de 77,31 por artículo.

#### DISCUSIÓN

Se han estudiado las características bibliométricas de los trabajos sobre dehiscencia del canal semicircular posterior (DCSP) por ser un trastorno otológico, muy poco prevalente, de difícil de sospecha, descubierto recientemente (la primera contribución se publicó en el año 2003), con escaso número de publicaciones, sobre el que hasta la fecha

no se había realizado ningún estudio bibliométrico, y por lo tanto se desconoce la preponderancia de los artículos en las revistas que publican sobre dicho tema, así como el impacto que dichas publicaciones tienen en la comunidad científica.

En cuanto a las bases de datos llama la atención el porcentaje de trabajos que hemos excluido por no cumplir los criterios requeridos. Fueron rechazados 24 documentos en Pubmed (24,2%), 19 en *Web of Science* (21,3%), 26 en Scopus (23,6%) y 11 en Alcorze (84,6%). Este hecho revela que hay un importante número de publicaciones no relacionadas directamente con el tema, o que incluso nada tienen que ver con él, y que aparecen al utilizar palabras claves en las distintas plataformas. En una revisión sobre la clínica de la DCSP realizada por Lee et al. 2020 [6] utilizando tres bases distintas, mostraron el mismo problema: de las 96 referencias seleccionadas excluyeron 38 (39,5%). Hay que precisar que en esta revisión como criterios de exclusión rechazaban entre otras causas los artículos cuyo texto no estaban escrito en inglés, los artículos de revisiones y los estudios en animales que nosotros no hemos realizado. Obón et al. 2019 [7] en su trabajo bibliométrico sobre el canal semicircular superior, utilizando exclusivamente como base de datos Pubmed, desechó el 18,2% de los documentos.

Pensamos que este hecho es debido a una elección inadecuada de las palabras claves que incluyen el término dehiscencia sin precisar donde se localizan en el hueso temporal (acueducto de Falopio, ganglio geniculado, *tegmen tympani*) o sobre qué canal semicircular asientan (superior, lateral o posterior). Creemos que evitando utilizar términos erróneos se podría evitar en parte este sesgo en la selección y mejorar su indexación.

Otro dilema que tenemos es elegir la adecuada base de datos a utilizar en la búsqueda bibliográfica. Bordons et al. 2002 [8] y Saunders et al 2017 [9] recomiendan utilizar MEDLINE (Pubmed) por ser, según ellos, la más completa y Martin-Rodero et al. 2016 [10] afirma que es un buen instrumento para

evaluar la calidad de las distintas fuentes, debido a la rigurosa selección de publicaciones que en ella aparecen. En cambio, Hernández-González et al. 2016 [11] y Delgado-López et al. 2013 [12] prefieren utilizar Scopus sobre *Web of Science* (WoS) ya que esta base tiene mayor cobertura en países no angloparlantes y por lo tanto aumenta el número de documentos.

Como las diferentes bases presentan comportamientos distintos en alguno de los indicadores, y aunque a nosotros Scopus es la que nos ha aportado más datos, aconsejamos el uso de varias bases de datos en los estudios bibliométricos ya que potencian y refuerzan los resultados.

De los indicadores de forma y contenido nos ha llamado la atención la presencia de un gran número de casos clínicos (34, 37,8% del total de publicaciones) hecho que interpretamos porque, al ser un síndrome nuevo y de baja prevalencia, los distintos clínicos se han animado a publicar sus propios casos para mayor conocimiento del síndrome por parte de la comunidad científica y no tanto, como indica Beltrán et al. 2006 [13], a una manipulación por parte de las editoriales para elevar el índice de impacto de sus revistas. Sin ir más lejos en nuestro estudio hemos observado que *Otology & Neurotology* y *Laryngoscope*, revistas con un alto prestigio que no necesitan valerse de este procedimiento para aumentar su impacto, han publicado entre ambas 9 casos clínicos.

Al evaluar y analizar los distintos indicadores de las publicaciones sobre DCSP hemos observado en primer lugar el número de estas agrupadas en periodos de 5 años, como sugiere Franchignoni et al. 2011 [14], observando como el crecimiento de la producción se encuentra en fase sostenida. En el periodo de 2003 al 2007 se publicaron solamente 9 trabajos, aumentando a 35 entre 2008 y 2012, equivaliendo a un incremento casi cuádruple. Entre 2013 y 2017 no existe crecimiento ya que la producción se estanca con otras 35 publicaciones debido principalmente al descenso de estas en los años 2016 y 2017. En los años 2018 y 2019 hay un

total de 11, a los que tenemos que sumar 4 en lo que llevamos hasta abril del año 2020. El número de trabajos que se publiquen hasta el 2022 nos dará la clave para ver si la tendencia es hacia un crecimiento, o va en descenso y por lo tanto hacia el agotamiento de tema.

No hemos podido analizar el crecimiento desde la ley de crecimiento de Solla-Price, ya que para ello se precisan periodos de 10 años y todavía faltan 3 años para completarlos. Sólo podemos ver que existe una ligera tendencia al crecimiento ya que en el periodo de 2003 al 2012 se publicaron un total 44 documentos, mientras que de 2013 al 2019 se dieron un total de 46. Tendrán que transcurrir 3 años más para ver si realmente las publicaciones alcanzan un crecimiento exponencial como correspondería teóricamente según esta ley que no creemos ya que la media de publicaciones por año ha sido de 5 y no vemos muy factible que la producción total alcance las 88 publicaciones. Especulamos que, debido a las peculiares características de esta patología, como son su baja prevalencia y difícil diagnóstico, lo más probable es que la producción tenga una evolución propia y se mantenga en un crecimiento sostenido y de archivo del conocimiento.

Siguiendo el resto de las leyes bibliométricas, la ley de dispersión o índice de Bradford nos indica que el núcleo principal está constituido por cuatro revistas, hecho que denota la concentración de la producción en muy pocas revistas.

La ley de productividad sesgada de Lotka nos indica la baja productividad de los autores que publican sobre la DCSP: 286 son bajos productores y no hay ningún autor que pueda ser considerado gran productor (10 o más trabajos). Estos datos son muy similares al comparar nuestros resultados con los que aparecen en *Web of Science* o Scopus.

El índice de rendimiento para las instituciones también fue bajo: de las 77 instituciones sólo una fue gran productora (*Harvard Medical School* con sus correspondientes hospitales asociados) 8 medianas y 68 eran bajas. Al analizar la colaboración entre centros observamos que también fue

bajo y solamente 14 de los trabajos se realizaron en más de un centro.

Refuerza esta baja productividad los índices de actividad por autores de 0,77, cuando lo normal para los trabajos biomédicos sea de 2,31 según Sanz y Wanden 2017 [15], y un índice de transitoriedad bastante alto con 245 autores (62,5%) con sólo un artículo publicado sobre el tema.

La calidad de las revistas la hemos analizado utilizando tanto el *Journal Citation Reports* (JCR) como el *Scimago Journal Rank* (SJR) debido a que el factor de impacto (FI) varía mucho del contexto en que se aplique, en nuestro caso un tema con escaso número de publicaciones 90 y revistas 48. Estamos de acuerdo con Cantin et al 2015 [16] en que todas las revistas indexadas tanto en JCR como en SCR tienen un nivel de calidad acreditado y, como sugieren Oosthuizen y Fenton 2013 [17], la utilización de ambos índices simultáneamente nos permite reafirmar la calidad de dichas revistas.

Ante la imposibilidad de comparar valores numéricos de una revista que aparece en distintas áreas dentro de un mismo campo, como es nuestro caso donde muchas de las revistas estaban incluidas en dos o tres campos diferentes, hemos elegido para estudiar la calidad el cuartil donde figuraban el año de su publicación, y no el factor de impacto numérico (FI) como indica Trilla et al. 2000 [18].

Como se ve en la Figura 4 los resultados de ambos índices en un principio son diferentes, mientras que en el JCR hay 13 revistas Q1 y 30 en Q2, en el SJR hay 41 y 23 respectivamente. Pero cuando en *Web of Science* se utiliza el *ESI Total Citations* el número de revistas Q1 subió a 49 y el de Q2 bajó a 14. La utilización del ESI es recomendado cuando un campo es multidisciplinar y abarca varias áreas. De esta forma el 70% de las revistas son de una calidad alta-media, reafirmando nuestra idea de que las revistas que publican trabajos sobre DCSP son de alta calidad.

Para estudiar la calidad de los trabajos también hemos utilizado varios indicadores, siendo el primero el número total de citas: 1193 con un

índice cita/artículo de 13,25. De los 90 trabajos 83 (92,2%) fueran citados por otros autores en algún momento y dos trabajos tuvieron más de 100 citas, y por lo tanto se consideran «cita clásica».

El índice h-index de los respectivos manuscritos fue de 18. Cuando comparamos nuestro índice con el observado por Obón et al (2019) [7] sobre las citas de los trabajos sobre canal semicircular superior, que fue de 41, pensamos que el número h de las revistas de DCSP no es tan bajo ya que por cada trabajo de DCSP había cinco DCSS. Como este índice es difícil de cuantificar en trabajos sobre patologías con baja incidencia, hemos aplicado el i10-index como propone Google Scholar, que considera que una publicación que se ha citado 10 veces debe ser tomada como suficientemente relevante. El i10-index de nuestros artículos estudiados es 36 (40% del total) dato que refleja que, a pesar de la baja producción científica, los trabajos publicados son de importante calidad. Realizada la consulta en abril de 2020 sobre el i10-index de los trabajos DCSS este fue también del 40% (251/625) siendo muy similar a pesar de su mayor número.

Otro dato importante que reafirma la importancia del tema fue que tras comprobar el FWC (Índice de *Field Weighted Citation*) 25 de nuestros artículos tuvieron más de citas de las esperadas para su tema (FWC >1).

Respecto a las descargas, observamos que los artículos son aproximadamente siete veces más descargados que citados: 6958 descargas totales con una media de 77,31 por artículo. Al comparar los artículos más descargados con las citas que han recibido vemos que hay una gran desproporción: el artículo más descargado, Bear et al. 2015 [19], tiene 1019 descargas y tan sólo 2 citas. Este hecho refuerza nuestra idea de que el tema ha suscitado y sigue suscitando interés en la clase médica, y que la falta de publicaciones no es debido a falta de interés, sino a la baja prevalencia de esta dehiscencia.

Para terminar, nos gustaría hacer una reflexión sobre si es más importante que un trabajo tenga un alto índice de impacto, pero su visualización sea

mínima, o que no tenga impacto pero en cambio sea muy leído. Respecto a la primera situación podemos encontrar la justificación en el ámbito académico ya que el ascenso durante la carrera profesional se realiza mediante la publicación en revistas de alto impacto, mientras que la segunda cuestión es representada por el trabajo de Lorenzo et al. 2017 [20] como ejemplo con 553 descargas en la actualidad y ninguna citación. El objetivo era dar a conocer esta patología a un gran número de especialistas, como es en este caso la comunidad hispana, y fue conseguido pues 503 visualizaciones fueron en la base Scielo.

## CONCLUSIONES

Los datos bibliométricos revelan cómo los trabajos sobre dehiscencia del canal semicircular posterior representan una pequeña producción científica, el tema está en fase de crecimiento sostenido, los índices de autoría, institucionalidad y colaboración son bajos y las publicaciones se concentran en pocas revistas, con una orientación claramente anglófona, pero de alta calidad e importante visualización.

## DECLARACIÓN DE INTERESES

Los autores declaran que el texto del artículo procede del Trabajo Fin de Grado titulado «Dehiscencia del canal semicircular posterior: análisis de la producción científica (2003-2019)» de Guillermo Escuer Albero dirigido por Jaime Whyte Orozco y Jesús Obón Nogués que figuran como coautores publicado en <https://zaguan.unizar.es/record/111460/files/TAZ-TFG-2020-715.pdf>.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Villar F, Estrada JM, Pérez C, Rebollo MJ. Estudio bibliométrico de los trabajos originales de la revista española de salud pública (1991-2000) parte tercera: análisis de las referencias bibliográficas. *Rev Esp Salud Pública* 2007; 81: 247-59.

2. Krombach GA, DiMartino E, Schmitz-Rode T et al. Posterior semicircular canal dehiscence: a morphologic cause of vertigo similar to superior semicircular canal dehiscence. *Eur Radiol.* 2003; 13:1444-1450.
3. Crovetto MA, Whyte J, Rodríguez O, Lecumberri I, Martínez C, Eléxperu J. Anatomico-radiological study of the superior semicircular canal dehiscence radiological considerations of superior and posterior semicircular canals. *Eur J Radiol* 2010; 76:167-72.
4. Merchant SN and Rosowki JJ. Conductive hearing loss caused by third-window lesions of the inner ear. *Otol Neurotol* 2008; 29: 282-9.
5. Zhou G, Gopen Q, Poe D S. Clinical and diagnostic characterization of canal dehiscence syndrome: a great otologic mimicker. *Otol Neurotol* 2007; 28: 920-6.
6. Lee J, Liu Y, Nguyen S, McRackan T, Meyer T, Rizk H. Posterior Semicircular Canal Dehiscence. *Otol Neurotol* 2020; 41:511-521.
7. Obón J, Cisneros A, Gotor T, Whyte J. Dehiscencia del canal semicircular superior: Análisis de la producción científica. *Rev. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello* 2019; 79:315-322.
8. Bordons M, Fernández M, Gómez I. Advantages and limitations in the use of impact factor measures for the assesment of research performance in a peripheral country. *Scientometrics* 2002; 53, 195-206.
9. Saunders TFC, Rymer BC, McNamara KJ. A global bibliometric analysis of otolaryngology: Head and Neck Surgery literature. *Clin Otolaryngol.* 2017; 42: 13381342.
10. Martín Rodero H. Revistas de Otorrinolaringología (ORL): Impacto y visibilidad. *Rev ORL* 2016; 7,3: 133-136.
11. Hernández-González V, Sans-Rosell N, Jové MC, Reverter J. Comparación entre Web of Science y Scopus, estudio bibliométrico de las revistas de Anatomía y Morfología. *Int. J. Morphol.* 2016; 34: 1369-77.
12. Delgado-López E, Repiso R. El impacto de las revistas de comunicación: comparando Google Scholar Metrics, Web of Science y Scopus. *Comunicar* 2013, 21: 45-52.
13. Beltrán Galvis O. Factor de impacto. *Rev Col Gastroenterol.* 2006; 21: 57-61
14. Franchignoni F, Muñoz Lasa S. Bibliometric indicators and core journals in physical and rehabilitation medicine. *J Rehabil Med* 2011; 43: 471-6.
15. Sanz-Salero J, Wanden-Berghe C. Análisis bibliométrico de la producción científica, indizada en Medline, sobre los servicios de salud proporcionados por las unidades de hospitalización a domicilio. *Hosp Domic.* 2017; 1: 21-34.
16. Cantín M, Muñoz M, Roa I. Comparison between impact factor, Eigenfactor Score, and Scimago journal rank indicator in Anatomy and Morphology Journals. *Int. J. Morphol.* 2015; 33: 1183-8.
17. Oosthuizen JC and Fenton JE. Alternatives to the important factor. *Surgeon* 2014; 12: 239-43.
18. Trilla A, Amymerich M, Carné X, Asenjo MA, Rodés J. Comparative analysis of articles published by Spanish authors (1993-1997) in biomedical journals with high impact factor. *Med Clin (Barc)* 2000; 114: 609-613.
19. Bear ZW, McEvoy TP, Mikulec AA. Quantification of hearing loss in patients with posterior semicircular canal dehiscence. *Acta Oto-Laryngol* 2015; 135: 974- 7.
20. Lorenzo R, Cisneros A, Whyte J. Revisión sobre los conocimientos actuales de dehiscencia del canal semicircular posterior. *Rev. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello* 2017; 77: 317-325.



## ORBITOPATÍA TIROIDEA. PUNTOS CLAVE PARA EL DIAGNÓSTICO Y TRATAMIENTO

### *Thyroid orbitopathy. Tricks for diagnosis and treatment*

Victoria MARQUÉS-FERNÁNDEZ <sup>1</sup>; Alicia GALINDO-FERREIRO <sup>1</sup>; Jose Maria PALACIOS-MURES<sup>2</sup>; Maria del Mar VILLACORTA-MARTÍN

Hospital Universitario Río Hortega. <sup>1</sup>Servicio de Oftalmología. <sup>2</sup>Servicio de Endocrinología. Valladolid. España.

Correspondencia: [ali\\_galindo@yahoo.es](mailto:ali_galindo@yahoo.es)

Fecha de recepción: 18 de noviembre de 2022

Fecha de aceptación: 19 de abril de 2023

Fecha de publicación: 25 de mayo de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 18 de diciembre de 2023

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses

Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes

Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO)

Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional

Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

**RESUMEN:** Objetivo: La orbitopatía tiroidea (OT) es una patología autoinmune de etiología desconocida. Se trata de una enfermedad edematosa e inflamatoria crónica y a veces subaguda o aguda, cuyas características principales son edema palpebral, úlceras corneales, hipertensión ocular, exoftalmos generalmente bilateral, estrabismo restrictivo, diplopía y neuropatía óptica. El objetivo principal es realizar una revisión y actualización acerca del enfoque diagnóstico y terapéutico de la OT. Realizar una revisión y actualización acerca del enfoque diagnóstico, terapéuticos de la OT. Métodos: Revisión de la literatura publicada referente a la OT y manera actual de enfocar esta patología. Resultados: La OT es una enfermedad inflamatoria orbitaria con un posible origen autoinmune y que suele asociarse a trastornos metabólicos de la glándula tiroidea. Fisiopatológicamente su mecanismo no está claro. Afecta mayormente a mujeres y está negativamente influenciada por factores como el tabaquismo, la edad, el sexo y la raza. Es imprescindible clasificarla en cuanto a su severidad y su actividad para un correcto manejo. Conclusiones: El conocimiento clínico de OT es esencial para el diagnóstico precoz de la enfermedad. El tratamiento médico, en caso de OT activa, debe ser precoz, agresivo y acorde a la fase en que se presente el paciente con el fin de evitar las graves consecuencias de la OT. El tratamiento quirúrgico deberá ser lógico y ordenado, pero a su vez rápido, con el fin de devolver al paciente al entorno laboral, social y familiar.

PALABRAS CLAVE: órbita; tiroides; enfermedad de Graves; oftalmopatía; orbitopatía.

**SUMMARY:** Purpose: Thyroid orbitopathy (TO) is an autoimmune disease of unknown etiology. It is a chronic and sometimes subacute or acute edematous and inflammatory disease, the main characteristics of which are eyelid edema, corneal ulcers, ocular hypertension, generally bilateral exophthalmos, restrictive strabismus, diplopia and optic neuropathy. The main purpose of this work is to review and update the current diagnostic and therapeutic approaches. To propose a practical, basic and precocious approach based in the knowledge of the TO. Methods: Literature review and exposition of our experience in the management of TO. Results: TO is an inflammatory orbital disease that probably has an autoimmune origin and most of the time is related to systemic disorders of the thyroid gland. Pathogenesis of the disease is not yet fully understood. Women are more likely to develop TO, and the disease is clearly affected by several factors such as smoking, age, sex and race. It is crucial to determine TO severity and activity for a correct management. Conclusions: Clinical knowledge is essential for the early diagnosis of this disorder, and it is the most important factor for the proper management of the disease. The medical treatment must be initiated promptly and should be aggressive and based in the current phase of the disease, in order to avoid the severe damage that follows TO. The surgical approach must be logical and sequential, but, on the other hand, must be rapid and aggressive in order to return the patient to his/her labour, social and familiar environment.

**KEYWORDS:** orbit; thyroid; Graves' disease; ophthalmopathy; orbitopathy revise MeSH.

## INTRODUCCIÓN

La orbitopatía tiroidea (OT) es una patología autoinmune de etiología desconocida. Se trata de una enfermedad edematosa e inflamatoria crónica y a veces subaguda o aguda, cuyas características principales son edema palpebral, úlceras corneales, hipertensión ocular, exoftalmos generalmente bilateral, estrabismo restrictivo, diplopía y neuropatía óptica [1]. Alrededor del 90% de OT se asocian a hipertiroidismo, 5% hipotiroidismo (como tiroiditis de Hashimoto), y 5% eutiroidismo [2]. Es conocida también con el nombre de oftalmopatía de Graves por su asociación con la enfermedad de Graves, considerándose la manifestación extratiroidea más frecuente de esta enfermedad [2]. Es la primera causa de patología orbitaria.

La incidencia de OT en enfermedad de Graves es del 50%, la gran mayoría solo presentará formas subclínicas y solo un 3-5% desarrollarán formas severas [3]. Tiene un predominio del sexo femenino [1]. La edad de presentación de la OT presenta rango de edad puede oscilar entre los 25 a 65 años.

La edad media de presentación es ligeramente mayor en hombres que en mujeres.

Este artículo ofrece una actualización en la clínica, diagnóstico y manejo actual de la OT, siguiendo las guías de la EUGOGO 2021 (*European Group On Graves's Orbitopathy*, [www.eugogo.eu](http://www.eugogo.eu)).

## MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una revisión bibliográfica de las publicaciones referentes a la OT y a la manera actual de enfocar esta patología en las bases de datos PubMed, EMBASE y Cochrane Library. Los términos de búsqueda en idioma español e inglés fueron: "*European Group on Graves's orbitopathy*"; "*Grave's Disease*" or "*Grave's orbitopathy*"; "*orbital decompression*"; "*orbitopathy management*"; "*surgical treatment in grave's orbitopathy*"; "*glucocorticoids in grave's orbitopathy*"; "*medical treatment in grave's disease or grave's orbitopathy*"; "*thyroid eye disease*"; "orbitopatía tiroidea"; "manejo no quirúrgico de la orbitopatía tiroidea"; "tratamiento quirúrgico de la orbitopatía de Graves", con más de

2600 resultados desde el año 2012 hasta noviembre de 2022.

## RESULTADOS

Al tratarse nuestro trabajo de una actualización de las guías de diagnóstico y manejo de la OT nos hemos basado principalmente en las guías de la EUGOGO del año 2021 por ser estas las más recientes. No obstante, se han revisado y aportado datos de un total de 57 artículos añadiendo finalmente a la bibliografía de este manuscrito 37 referencias, cuatro de las cuales hacen referencia a revisiones de la EUGOGO entre ellas, la guía de manejo del año 2016.

## DISCUSIÓN

### FACTORES DE RIESGO

Dentro de los factores de riesgo de la OT están la disfunción tiroidea (hipertiroidismo y tiroiditis de Hashimoto), el tabaquismo y el tratamiento con iodo radioactivo.

Respecto al tabaco señalar que es el principal factor de riesgo de desarrollar una OT cuando existe enfermedad de Graves, puede empeorar una OT preexistente y el riesgo aumenta con el número de cigarrillos y disminuye al dejar de fumar [4].

### CLÍNICA

Los signos y síntomas más frecuentes en la OT son los indicados en la Tabla 1.

Cuando recibimos una OT, lo primero que debemos hacer es clasificarla en función de su gravedad (leve, moderado-severo y muy severo/neuropatía óptica) y su actividad (activa e inactiva) [4].

La Clasificación de la gravedad en la OT de la EUGOGO se expone en la Tabla 2 [5].

La EUGOGO establece parámetros para la puntuación de actividad clínica (PAC/CAS) que otorga 1 punto a cada uno de los elementos

Tabla 1. Signos y Síntomas de la orbitopatía Tiroidea (OT).

Córnea -conjuntiva	Hiperemia bulbar, Queratoconjuntivitis límbica superior /sicca, Úlceras corneales
párpados	Edema, retracción palpebral
Músculos extraoculares	Miopatía restrictiva
grasa	Aumento volumen
Glándula lagrimal	Engrosamiento/ojo seco
Nervio óptico	Neuropatía óptica, alteración colores, defecto pupilar aferente

Tabla 2. Clasificación de la gravedad en la OT de la Declaración de Consenso del Grupo Europeo sobre Orbitopatía de Graves (EUGOGO).

OT LEVE	Pacientes con leve impacto en vida diaria, QoL Buena, insuficiente para justificar tratamiento inmunosupresor. Tiene solo 1 de las siguientes características: retracción palpebral <2mm, afectación leve tejidos blandos, exoftalmos <3mm, diplopía transitoria o ausente, exposición corneal que mejora con lubricantes.
OT MODERADA-SEVERA	Pacientes con gran impacto en vida diaria, QoL afectada, que justifica tratamiento inmunosupresor o quirúrgico. Tiene solo 1 de las siguientes características: retracción palpebral >2mm, afectación grave tejidos blandos, exoftalmos >3mm, diplopía constante.
OT MUY SEVERA	Pacientes con neuropatía óptica compresiva y/o alteración corneal severa por exposición.

presentes, considerando una OT activa si PAC  $\geq$  3 (Tabla 3).

### FISIOPATOLOGÍA

La fisiopatología de la OT no está clara aún. El hipertiroidismo está producido por la interacción de las inmunoglobulinas estimulantes del tiroides (TSI) con los receptores de TSH, existiendo un autoantígeno común al tejido tiroideo y a los tejidos

Tabla 3. Parámetros para la puntuación de actividad clínica (PAC) O CLINICAL ACTIVITY SCORE (CAS), EUGOGO.

En la primera visita y sucesivas
Dolor ocular espontáneo
Dolor ocular al movimiento
Enrojecimiento palpebral
Enrojecimiento conjuntival
Edema párpados
Edema conjuntival (quemosis)
Edema o hiperemia carúncula
A partir de la segunda visita
Empeoramiento de exoftalmos >2mm
Empeoramiento de MOE
Pérdida de más de una línea Esnellen

orbitarios. En la OT nos encontramos con un aumento de volumen de los músculos extraoculares, de la grasa y del tejido conectivo al que se llega por un mecanismo de reconocimiento del antígeno que comparten tiroides y tejidos orbitarios por parte de los linfocitos T autorreactivos y los linfocitos T CD4+, segregando estos últimos citocinas que van a activar a los CD8+ y los fibroblastos que secretan glucosaminoglicanos, produciendo un efecto osmótico que edematiza el espacio retrororbitario, con el consiguiente edema periorbitario y muscular que conduce a la aparición de proptosis. Por otro lado, se produce un aumento del tejido graso de la órbita debido a la transformación hormono-dependiente de los fibroblastos en adipocitos; además existe una infiltración muscular de linfocitos, macrófagos y mastocitos que producen desestructuración-atrofia de dicha musculatura que altera su función. [6–8] Sin embargo hay pacientes con OT en los que no se detecta anti TSI. Se conoce que existen otros mecanismos implicados en la OT, como el derivado de la activación de los receptores del factor de crecimiento insulínico tipo 1 [9].

#### PROTOCOLO DE ACTUACIÓN ANTE UN PACIENTE CON ORBITOPATÍA TIROIDEA

Debemos mantener una estrecha relación entre el médico endocrino, el oftalmólogo, el otorrinolaringólogo y el médico de atención primaria para

conocer el estado del paciente, dado que sin un correcto control endocrino no va a ser posible un buen control oftalmológico [10].

El papel del endocrino es fundamental para determinar los valores de hormonas tiroideas e hipofisarias (T3, T4, TSH), y el tratamiento más adecuado: fármacos antitiroideos, yodo radiactivo y/o tiroidectomía total o subtotal para conseguir el eutiroidismo [11].

Dentro de las tareas a desarrollar por parte del oftalmólogo, están las siguientes [12]:

- Exploración oftalmológica completa [13].
- Encuesta de calidad de vida de OT, de EUGOGO (QoL) Debe ser entregada en cada visita [14].
- TAC orbitario: con finalidades diagnósticas y terapéuticas para planificación quirúrgica en casos de descompresión. [15]
- Analíticas seriadas Anticuerpos anti TSI (anti-Trab).

#### Derivación a centros especializados

Tras una valoración del paciente por los médicos de atención primaria o por oftalmólogos generales, se debe decidir si el paciente debe ser evaluado y tratado por un centro especializado en pacientes tiroideos. A continuación exponemos determinados criterios que nos pueden ayudar a tomar esa decisión [12]:

- No remitir pacientes con antecedentes de enfermedad de Graves que no tienen síntomas ni signos de OT.
- Remitir pacientes con presentaciones poco habituales (OT unilateral o OT eutiroides),
- Derivación urgente si:
  - Deterioro inexplicable de la visión, conciencia de cambio en la intensidad o en la calidad de la visión del color en uno o en ambos ojos o antecedentes de subluxación ocular repentina.
  - Opacidad evidente de la córnea, córnea expuesta cuando se cierran los párpados o inflamación de la papila óptica.

- Derivación no urgente:
  - Ojos anormalmente sensibles a la luz, arenosos que no mejoran tras 1 semana de lubricantes tópicos, dolor detrás de los ojos, detección de un cambio progresivo en el aspecto de los ojos y/o los párpados en los últimos 1-2 meses causando preocupación en el paciente, diplopía.
  - Existencia de retracción palpebral, inflamación o enrojecimiento anormal de párpado o conjuntiva, restricción de movimientos oculares, inclinación de la cabeza para evitar la visión doble.

#### MANEJO DE LA ORBITOPATÍA TIROIDEA

El oftalmólogo establecerá el tipo de tratamiento a emplear en la OT. Se pueden emplear diferentes opciones en función de las necesidades.

Médicos Tratamientos médicos:

- Medidas conservadoras oculares (a realizar en todos los pacientes)
- Bolos de metilprednisolona +/-micofenolato
- Radioterapia
- Terapia biológica

Tratamientos quirúrgicos:

- Descompresión orbitaria (DO)
- Cirugía del estrabismo
- Cirugía palpebral

#### TRATAMIENTO MÉDICO DE LA ORBITOPATÍA TIROIDEA [4] (FIGURA 1)

Para cualquier OT independiente del grado, se aplicarán las siguientes medidas locales:

- Lubricantes tópicos (lágrimas artificiales y pomada durante la noche)
- Control hormonal estricto
- Dejar de fumar

Orbitopatía tiroidea leve

- Inactiva. Selenio 200microgr/día durante 6 meses desde el diagnóstico. Comparado con

placebo, el selenio también mejoró los test de calidad de vida (GO-QoL). La suplementación con selenio a largo plazo se ha asociado con un riesgo aumentado de desarrollo de diabetes mellitus 2 [4, 16, 17].

Si la OT leve es estable y con la enfermedad inactiva podemos mantenerlo simplemente con observación. En aquellos casos en los que persista una retracción palpebral se puede realizar cirugía para corregirla siempre que se haya mantenido estable mínimo un año.

Se debe vigilar a los pacientes con OT leve inactiva porque un 15% de ellos en el tiempo se convertirán en OT moderada-severa.

- Activa. Asociada a una afectación grave de la QoL, justificaría el tratamiento con bolos de metilprednisolona durante 12 semanas

Orbitopatía tiroidea moderada-severa

- Inactiva. se valorará cirugía rehabilitadora
- Activa.

A- Esteroides. Son el tratamiento de elección para las formas moderadas-severas de la OT [18, 19].

Opción 1. OT moderada corticoides iv en forma de pulsos de metilprednisolona 500 mg una vez a la semana, [6 ciclos, y después otras 6 semana 250mgr/día].

Opción 2. OT severa, en los que exista diplopía constante o intermitente, proptosis severa y afectación severa de tejidos blandos. Se administrarán corticoides intravenosos en forma de pulsos de metilprednisolona 750 mg una vez a la semana i.v. sin asociar vía oral [6 ciclos, y después otras 6 semana 500 mgr/día].

Se emplea la vía intravenosa en pulsos en formas severas de OT que presenta menor tasa de efectos adversos que dosis altas de prednisona vía oral. Dosis altas de corticoides intravenosos (dosis acumulada mayor de 8 g) se han relacionado con fallo hepático y deben de ser evitadas.

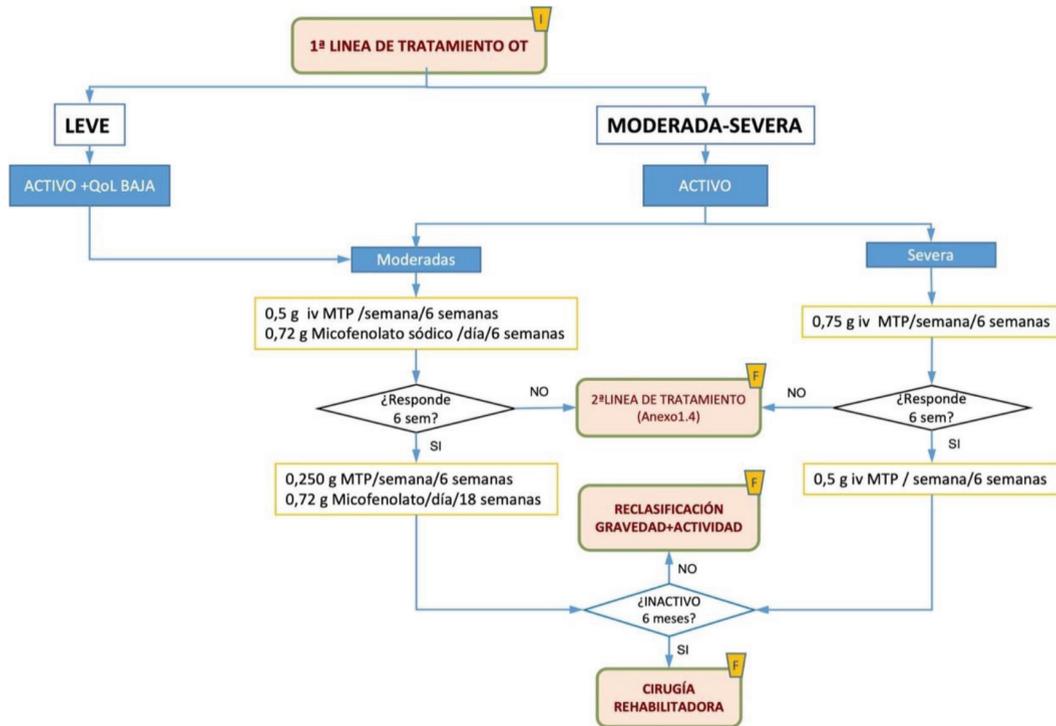


Figura 1. Algoritmo de tratamiento orbitopatía tiroidea (OT) activa 1ª línea de EUGOGO 2021.

Debemos tener en cuenta los siguientes puntos antes del tratamiento corticoideo:

- Control analítico completo con perfil hepático, renal y serologías (VHB, VHC, VIH, Quantiferón) y HbA1c para descartar situaciones de disfunción hepática, diabetes mellitus e infecciones sistémicas como Tuberculosis (Quantiferón), VIH o sífilis (treponema) A valorar, hipertensión arterial, antecedentes de úlcera, infección urinaria y glaucoma. Solicitaremos inmunoglobulinas IgG, A y M si tratamiento con rituximab.
- Si la prueba de quantiferón es positiva debe hacerse tratamiento de infección tuberculosa latente (isoniacida 9 meses, comenzando un mes antes del tratamiento inmunosupresor). A partir de los 65 años hay que valorar

riesgo-beneficio ya que el riesgo de hepatotoxicidad grave aumenta al 5 %.

- Vacunación. La vacuna antineumocócica debe administrarse, al menos 2 semanas antes del inicio del tratamiento corticoideo:
  - No vacunados previamente: Vacuna anti-neumocócica 13 Valente (dosis única), seguida 6 meses después de la 23 Valente.
  - Vacunados con 13 Valente: Administrar dosis 23 Valente si ha pasado un año desde última vacunación
  - Vacunados con 23 Valente: Repetir 2 dosis adicionales separadas 5 años. Una sola dosis de revacunación después de los 65 años.
- Vacunación antigripal. Se recomienda la vacunación anual a todos los pacientes inmunosuprimidos.

- Se añadirá Trimetropin/Sulfametoxazol (Septrim forte®) 160/800 mg tres veces por semana, durante los tres meses de terapia esteroidea. Los pacientes bajo el efecto sistémico de fármacos inmunosupresores pueden verse afectados por infecciones oportunistas como Pneumocistis Carinni causantes de cuadros neumónicos severos [20–22]

### B- MICOFENOLATO SODICO (MOFETIL) ORAL

El micofenolato inhibe de forma competitiva y reversible la inosina monofosfato deshidrogenasa, lo que da como resultado una disminución de la producción de anticuerpos por parte de las células B y un efecto antiproliferativo dual sobre las células B y T.

Se debe administrar en combinación con iv MP en bolos a dosis de 0,72gr/día durante 24 semanas

OT activa moderada no respondedores a esteroides. Segunda línea de tratamiento. Figura 2.

Se podrán tener en cuenta las siguientes opciones [19]:

A. Segunda administración de Bolos de MP iv, después de comprobar la función hepática, comenzando por 750mgr/día 6 semanas y seguido de 500mgr/día a la semana otras 6 semanas

B. Radioterapia externa (RT)

Si presenten diplopía o una motilidad restringida a pesar del tratamiento con esteroides, podemos recurrir a la radioterapia (RT) con corticoides iv simultáneos. La RT con dosis acumuladas inferiores (10 Gy) puede ser tan eficaz y mejor tolerada a que la RT con dosis mayores (20 Gy). Hay que tener precaución en pacientes menores de 35 años, diabéticos con retinopatía y en hipertensos graves. Se usa en pacientes con OT moderada – severa en los que los corticoides están contraindicados, no se toleran o son ineficaces. [23–25].

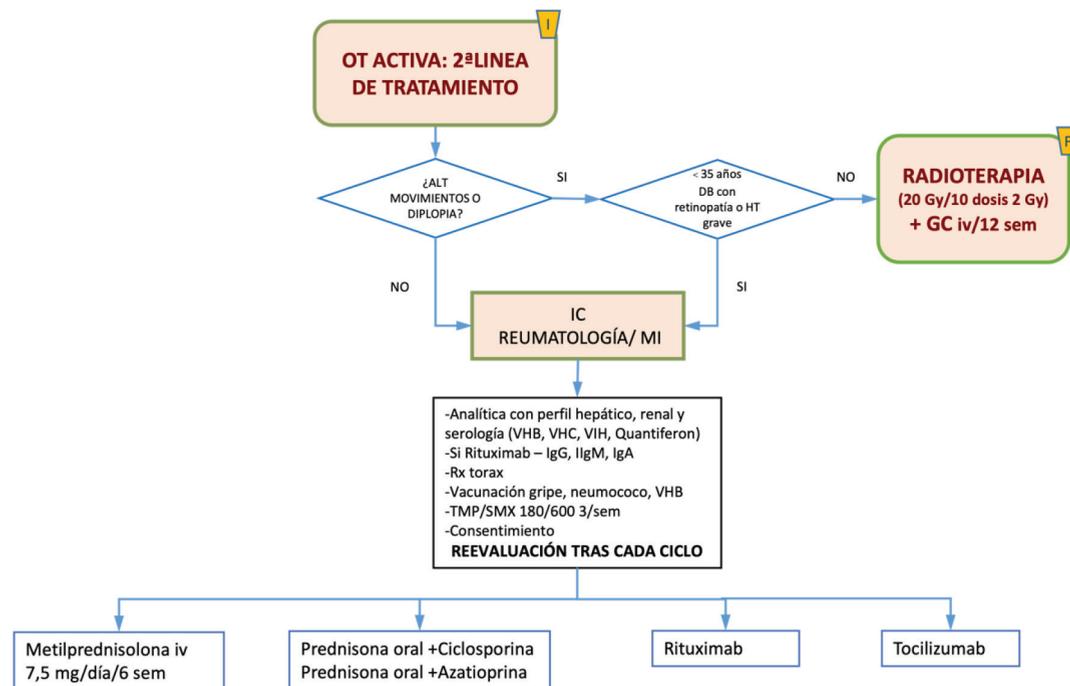


Figura 2. Algoritmo en orbitopatía tiroidea activa segunda línea en no respondedores a esteroides, adaptado EUGOGO 2021.

C.-Prednisona/prednisolona oral con ciclosporina [4, 26] La ciclosporina es un potente agente inmunosupresor que inhibe la vía de la calcineurina reduciendo la proliferación de células T y la secreción de IL-2. La combinación de ciclosporina (dosis inicial: 5–7,5 mg/kg de peso corporal/día) y prednisolona oral (dosis inicial: 50–100 mg/día) tuvo un mejor resultado y una menor tasa de recaída que la monoterapia con prednisolona oral. [26]

D.- Prednisona/prednisolona oral con azatioprina

La azatioprina es un agente antiproliferativo con un mecanismo de acción similar al del micofenolato, que se utiliza con frecuencia como "agente ahorrador de esteroides" en enfermedades autoinmunes/inflamatorias. La azatioprina fue ineficaz en GO como agente único [27], pero los estudios observacionales sugirieron beneficios en combinación con dosis bajas de glucocorticoides. [28]

Las dosis varían entre 100 y 200 mg al día dependiendo del peso del paciente. [29]

E.-Terapias biológicas.

Este tipo de fármacos se usan como alternativa a los glucocorticoides intravenosos o si falla la RT. De momento las indicaciones son como uso compasivo, pero parece que su uso en pacientes seleccionados puede ser, en un futuro próximo, una alternativa eficaz en el tratamiento de la OT. [4, 30]

Teprotumumab — El teprotumumab (Ac monoclonal anti receptor de IGF1) fue aprobado para el tratamiento de la OT por la FDA (US Food and Drug Administration) a inicios del año 2020. Tras ser establecido el beneficio del anticuerpo frente a placebo, en cuanto a reducción de la puntuación CAS y el grado de proptosis. Se administra cada semana durante 3 como una infusión intravenosa (10 mg/kg de dosis inicial y posteriormente 20 mg/kg) hasta un total de 8 infusiones. Náuseas (17 vs 9 %), diarrea (12 vs 8%), espasmos musculares (25 vs 7%), e hiperglucemia (10 vs 1 %) son los efectos secundarios que con mayor frecuencia fueron repostados en el grupo de teprotumumab. [9, 31] No está aprobado en España.

Tocilizumab — actúa sobre la interleucina 6 (IL 6) y se usa habitualmente en pacientes con artritis reumatoide. En la OT se ha estudiado para emplearlo en pacientes no respondedores a corticoides. En un ensayo randomizado, 32 pacientes con OT fueron asignados al grupo de tocilizumab (8 mg/kg) frente al grupo de infusión de placebo y se valoró la respuesta en cada grupo a las 0, 4, 8, y 12 semanas. En el grupo tratado con tocilizumab se observó una mejoría en el CAS a las 6 semanas (93.3 s 58.8 % con placebo) pero sin diferencias significativas entre ambos grupos a las 40 semanas [32]. El tratamiento con este fármaco exige monitorizar neutrófilos, plaquetas y transaminasas por si fuera necesario reducir a 4 mg/kg o interrumpir el tratamiento. [6]

Rituximab — En estudios observacionales, el rituximab, un anticuerpo monoclonal contra las células B, ha sido reportado tan eficaz como los corticoides sin los efectos secundarios de los mismos. Dos ensayos prospectivos presentaron resultados contradictorios debido principalmente a la diferencia entre el grado de actividad que presentaba cada paciente y la duración de la orbitopatía. [33, 34] Existe controversia sobre qué dosis usar en la OT variando entre 100 y 2000 mg; Campi y cols. En 2022 [35] publican un ensayo clínico randomizado el que comparan diferentes pautas de dosificación del rituximab y concluyen que la dosis más coste-eficiente es una única infusión de 500 mg, disminuyendo así el riesgo de efectos secundarios. Dosis más bajas, de 100 mg, también han sido evaluadas pero no consiguen inactivación completa de la OT o no es eficaz en la prevención de evolución a neuropatía óptica.

El rituximab, por tanto, está especialmente indicado en OT moderada-severa no respondedora a corticoides cuyo principal componente sea la afectación de tejidos blandos, ya que se ha observado, que este fármaco no produce mejoría clínica significativa en términos de proptosis ni diplopía. [36]

OT muy severa, con alto riesgo para la viabilidad ocular, bien sea por peligro de perforación

ocular por lagofthalmos debido a gran proptosis o por neuropatía óptica distiroidea.

Tratar inmediatamente (con glucocorticoides intravenosos, metilprednisolona 1g/día durante 3 días seguidos o alternos (máximo 8 g) y al cuarto día se comienza con glucocorticoides orales 120 mg, no menos de 1 mg/kg/día en pauta descendente durante 3-4 meses y si no hay mejoría a 1 semana de inicio del tratamiento, proceder a la descompresión orbitaria urgente, de la pared medial, con o sin asociación de otras paredes.

## TRATAMIENTO QUIRURGICO DE LA ORBITOPATÍA TIROIDEA

Una vez que el paciente con OT se encuentra INACTIVO durante al menos 6 meses, podemos comenzar a proponerle cirugía rehabilitadora. Se pueden realizar diferentes procedimientos en el siguiente orden siempre que sea necesario: descompresión orbitaria, cirugía de músculos extraoculares para corregir miopatía restrictiva y diplopía si existiese y por último cirugía palpebral.

### CIRUGÍA DE DESCOMPRESIÓN ORBITARIA

Se contará con un equipo multidisciplinar en la programación de la cirugía, formado por cirujanos maxilofaciales, otorrinolaringología y cirujanos oftalmólogos-oculoplásticos.

Las indicaciones de DO son las siguientes:

- OT que causa proptosis y defecto estético.
- OT aguda muy severa que no responde a tratamiento médico
- OT progresiva que no responde a otras medidas

### OTRAS INTERVENCIONES

1-Descompresión grasa, retirando el exceso de tejido adiposo retroocular ha sido realizada durante muchos años y puede producir una corrección cosmética en pacientes con OT moderada y proptosis.

2.-Cirugía palpebral como Tarsorrafia lateral puede ser realizada para minimizar o prevenir el daño corneal en pacientes que tiene severa proptosis y no pueden cerrar sus ojos.

3.-Cirugía del estrabismo y DO, la descompresión se debe de realizar en primer lugar y posteriormente se realizará la del estrabismo. El estrabismo en la OT se origina en la fibrosis postinflamatoria de uno o varios músculos, en uno o ambos ojos. Esto se manifiesta por un engrosamiento del vientre muscular que respeta los tendones, dando una imagen característica en la TC o RM. [37]

4.-Cirugía palpebral. Se puede hacer cirugía de los párpados ante malposiciones del párpado inferior como del superior tras 4 meses de las anteriores cirugías.

## CONCLUSIONES

La OT es una patología que vemos a menudo en nuestra consulta y que en muchas ocasiones pasa desapercibida. Por esta razón es importante mantener un alto nivel de sospecha.

Una vez diagnosticada la OT es fundamental establecer un tratamiento adecuado en base a las características y la gravedad del paciente ante el que nos encontramos, por eso la utilización de protocolos de tratamiento multidisciplinar nos facilita nuestra práctica clínica diaria.

En la actualidad el tratamiento de la OT se basa en medidas locales, glucocorticoides intravenosos, radioterapia y/o cirugía, dependiendo del estadio de la enfermedad; y en un futuro próximo parece que las nuevas terapias biológicas van a tener un mayor protagonismo.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Leo M, Mautone T, Ionni I, Profilo MA, Sabini E, Menconi F, et al. Variables affecting the long-term outcome of graves orbitopathy following high-dose intravenous glucocorticoid pulse therapy in patients not treated with orbital radiotherapy. *Endocr Pract.* 2016;22:1177-86.

2. Li Z, Cestari DM, Fortin E. Thyroid eye disease: what is new to know? *Curr Opin Ophthalmol*. 2018;29:528–34.
3. Al-Sharif E, Alsuhaibani AH. Fat-removal orbital decompression for thyroid associated orbitopathy: The right procedure for the right patient. *Saudi J Ophthalmol*. 2017;31:156–61.
4. Bartalena L, Baldeschi L, Boboridis K, Eckstein A, Kahaly GJ, Marcocci C, et al. The 2016 European Thyroid Association/European Group on Graves' Orbitopathy Guidelines for the Management of Graves' Orbitopathy. *Eur Thyroid J*. 2016;5:9–26.
5. Bartalena L, Baldeschi L, Dickinson A, Eckstein A, Kendall-Taylor P, Marcocci C, et al. Consensus statement of the European Group on Graves' orbitopathy (EUGOGO) on management of GO. *Eur J Endocrinol*. 2008;158:273–85.
6. Taylor PN, Zhang L, Lee RWJ, Muller I, Ezra DG, Dayan CM, et al. New insights into the pathogenesis and nonsurgical management of Graves orbitopathy. *Nat Rev Endocrinol*. 2020;16:104–16.
7. Ludgate M. Fibrosis in dysthyroid eye disease. *Eye*. 2020;34:279–84.
8. Marcinkowski P, Hoyer I, Specker E, Furkert J, Rutz C, Neuenschwander M, et al. A new highly thyrotropin receptor-selective small-molecule antagonist with potential for the treatment of graves' orbitopathy. *Thyroid*. 2019;29:111–23.
9. Smith TJ, Kahaly GJ, Ezra DG, Fleming JC, Dailey RA, Tang RA, et al. Teprotumumab for thyroid-associated ophthalmopathy. *N Engl J Med*. 2017. <https://doi.org/10.1056/NEJMoa1614949>.
10. Perros P, Baldeschi L, Boboridis K, Dickinson AJ, Hullo A, Kahaly GJ, et al. A questionnaire survey on the management of Graves' orbitopathy in Europe. *Eur J Endocrinol*. 2006;155:207–11.
11. Efraimidis G. MANAGEMENT OF ENDOCRINE DISEASE: Predictive scores in autoimmune thyroid disease: are they useful? *Eur J Endocrinol*. 2019;181:R119–31.
12. Wiersinga WM, Perros P, Kahaly GJ, Mourits MP, Baldeschi L, Boboridis K, et al. Clinical assessment of patients with Graves' orbitopathy: The European Group on Graves' orbitopathy recommendations to generalists, specialists and clinical researchers. *Eur J Endocrinol*. 2006;155:387–9.
13. Ramli N, Kala S, Samsudin A, Rahmat K, Zainal Abidin Z. Proptosis - Correlation and Agreement between Hertel Exophthalmometry and Computed Tomography. *Orbit*. 2015;34:257–62.
14. Fayers T, Dolman PJ. Validity and reliability of the TED-QOL: A new three-item questionnaire to assess quality of life in thyroid eye disease. *Br J Ophthalmol*. 2011;95:1670–4.
15. Nkenke E, Benz M, Maier T, Wiltfang J, Holbach LM, Kramer M, et al. Relative en- and exophthalmometry in zygomatic fractures comparing optical non-contact, non-ionizing 3D imaging to the Hertel instrument and computed tomography. *J Cranio-Maxillofacial Surg*. 2003;31:362–8.
16. Negro R, Attanasio R, Grimaldi F, Marcocci C, Guglielmi R, Papini E. A 2016 Italian Survey about the Clinical Use of Selenium in Thyroid Disease. *Eur Thyroid J*. 2016;5:164–70.
17. Ventura M, Melo M, Carrilho F. Selenium and thyroid disease: From pathophysiology to treatment. *International Journal of Endocrinology*. 2017.
18. Xu N, Cui Y, Xie T, Zheng M. Comparative Efficacy of Medical Treatments for Thyroid Eye Disease: A Network Meta-Analysis. *J Ophthalmol*. 2018. <https://doi.org/10.1155/2018/7184163>.
19. Bartalena L, Kahaly GJ, Baldeschi L, Dayan CM, Eckstein A, Marcocci C, et al. The 2021 European Group on Graves' orbitopathy (EUGOGO) clinical practice guidelines for the medical management of Graves' orbitopathy. *Eur J Endocrinol*. 2021;185:G43–67.
20. Lehman JS, Kalaaji AN. Role of primary prophylaxis for pneumocystis pneumonia in patients treated with systemic corticosteroids or other immunosuppressive agents for immune-mediated dermatologic conditions. *J Am Acad Dermatol*. 2010;63:815–23.
21. Nieto-Ríos JF, Zuluaga-Quintero M, Aristizábal-Alzate A, Ocampo-Kohn C, Serna-Higueta LM, Ramírez-Sánchez IC, et al. Insuficiencia respiratoria hipoxémica grave por Pneumocystis

- jirovecii después de trasplante renal. *Biomedica*. 2018;38:32–6.
22. Calero-Bernal ML, Martín-Garrido I, Donazar-Ezcurra M, Limper AH, Carmona EM. Intermittent Courses of Corticosteroids Also Present a Risk for Pneumocystis Pneumonia in Non-HIV Patients. *Can Respir J*. 2016;2016.
  23. Bartalena L. What to do for moderate-to-severe and active Graves' orbitopathy if glucocorticoids fail? *Clin Endocrinol (Oxf)*. 2010;73:149–52.
  24. Viani GA, Boin AC, De Fendi LI, Fonseca EC, Stefano EJ, de Paula JS. Radiation therapy for graves' ophthalmopathy: A systematic review and meta-analysis of randomized controlled trials. *Arq Bras Oftalmol*. 2012;75:324–32.
  25. Dolman PJ, Rath S. Orbital radiotherapy for thyroid eye disease. *Current Opinion in Ophthalmology*. 2012.
  26. Kahaly G, Yuan JP, Krause U, Hülbusch K, Beyer J. Cyclosporin and thyroid-stimulating immunoglobulins in endocrine orbitopathy. *Res Exp Med*. 1989. <https://doi.org/10.1007/BF01855041>.
  27. Perros P, Weightman DR, Crombie AL, Kendall-Taylor P. Azathioprine in the treatment of thyroid-associated ophthalmopathy. *Acta Endocrinol (Copenh)*. 1990;122:8–12.
  28. Chalvatzis NT, Tzamalís AK, Kalantzis GK, El-Hindy N DS& PM. Safety and efficacy of combined immunosuppression and orbital radiotherapy in thyroid-related restrictive myopathy: two-center experience. *Acta Ophthalmol*. 2014.
  29. Rajendram R, Lee RW, Potts MJ, Rose GE, Jain R, Olver JM, et al. Protocol for the combined immunosuppression & radiotherapy in thyroid eye disease (CIRTED) trial: A multi-centre, double-masked, factorial randomised controlled trial. *Trials*. 2008;9:1–17.
  30. Strianese D. Efficacy and Safety of Immunosuppressive Agents for Thyroid Eye Disease. *Ophthalmic plastic and reconstructive surgery*. 2018.
  31. Patel A, Yang H, Douglas RS. A New Era in the Treatment of Thyroid Eye Disease. *Am J Ophthalmol*. 2019;208:281–8.
  32. Pérez-Moreiras JV, Álvarez-López A, Gómez EC. Treatment of active corticosteroid-resistant Graves' orbitopathy. *Ophthalmol Reconstr Surg*. 2014. <https://doi.org/10.1097/IOP.0000000000000037>.
  33. Zhao LQ, Yu DY, Cheng JW. Intravenous glucocorticoids therapy in the treatment of Graves' ophthalmopathy: A systematic review and Meta-analysis. *Int J Ophthalmol*. 2019;12:1177–86.
  34. Salvi M, Vannucchi G, Currò N, Campi I, Covelli D, Dazzi D, et al. Efficacy of B-cell targeted therapy with rituximab in patients with active moderate to severe graves' orbitopathy: A randomized controlled study. *J Clin Endocrinol Metab*. 2015;100:422–31.
  35. Campi I, Vannucchi G, Muller I, Lazzaroni E, Currò N, Dainese M, et al. Therapy With Different Dose Regimens of Rituximab in Patients With Active Moderate-To-Severe Graves' Orbitopathy. *Front Endocrinol (Lausanne)*. 2022;12 January:1–9.
  36. Burch HB, Perros P, Bednarczuk T, Cooper DS, Dolman PJ, Leung AM, et al. Management of thyroid eye disease: a Consensus Statement by the American Thyroid Association and the European Thyroid Association. *Eur Thyroid J*. 2022;11.
  37. Szucs-Farkas Z, Toth J, Kollar J, Galuska L, Burman KD, Boda J, et al. Volume changes in intra- and extraorbital compartments in patients with Graves' ophthalmopathy: Effect of smoking. *Thyroid*. 2005. <https://doi.org/10.1089/thy.2005.15.146>.



## MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA

### *Ear, nose, and throat manifestations of VEXAS Syndrome. Systematic review*

Lucía MARTÍNEZ-DÍAZ ; Carmelo MORALES-ANGULO 

*Facultad de Medicina. Universidad de Cantabria. IDIVAL. Servicio de Otorrinolaringología. Hospital Marqués de Valdecilla de Santander. España.*

*Correspondencia: [carmelo.morales@unican.es](mailto:carmelo.morales@unican.es)*

Fecha de recepción: 4 de julio de 2023

Fecha de aceptación: 8 de septiembre de 2023

Fecha de publicación: 10 de septiembre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 18 de diciembre de 2023

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses

Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes

Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO)

Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional

Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

**RESUMEN:** Introducción y objetivo: El síndrome VEXAS (SV) es una entidad de descripción reciente que afecta fundamentalmente a varones, y se debe a una mutación somática en el gen UBA1. Puede cursar con múltiples manifestaciones sistémicas, siendo la afectación de cabeza y cuello muy frecuente. El objetivo de este estudio fue describir las manifestaciones otorrinolaringológicas del SV, que contribuyan a un diagnóstico y tratamiento temprano de la enfermedad. Método: Se realizó una revisión de la literatura médica, utilizando los criterios PRISMA adaptados al tipo de estudio, de las manifestaciones otorrinolaringológicas del SV, utilizando la base de datos PubMed. Resultados: Fueron incluidos en nuestro trabajo 81 artículos que cumplían los criterios de inclusión del mismo, los cuales describían 133 casos. Los resultados mostraron que el SV se produce, sobre todo, en varones mayores de 50 años de edad, presentando en más de la mitad de los casos, manifestaciones de cabeza y cuello, entre las que destacan la CA, la condritis nasal y el edema periorbitario. Conclusiones: Con frecuencia el SV es confundido, en los pacientes con manifestaciones otorrinolaringológicas, con la policondritis recurrente. El conocimiento por parte del otorrinolaringólogo de las manifestaciones de cabeza y cuello asociadas al mismo, puede contribuir a un diagnóstico y tratamiento temprano mejorando el pronóstico de la enfermedad.

**PALABRAS CLAVE:** síndrome VEXAS; otorrinolaringología; condritis auricular; condritis nasal; hipoacusia neurosensorial.

**SUMMARY:** Introduction and objectives: VEXAS syndrome (VS) is a recently described clinical entity that mainly affects males, and is due to a somatic mutation in the UBA1 gene. It can present with multiple systemic manifestations, especially hematological and dermatological, being the affectation of the head and neck very frequent, especially, auricular chondritis (AC). The objective of this study was to describe the otorhinolaryngological manifestations of VS, knowledge of which by the otolaryngologist could contribute to early diagnosis and treatment of the disease. Methods: A review of the medical literature was carried out, using the PRISMA criteria adapted to the type of study, of the otorhinolaryngological manifestations of VS, from its description in the year 2020 to December 2022, using the Pubmed database. Results: 81 articles that met the inclusion criteria were included in our work, which described 133 cases in detail. The results showed that VS occurs mainly in men over 50 years of age, presenting in more than half of the cases head and neck manifestations, among which AC, nasal chondritis and periorbital edema stand out. Conclusions: Since VS can affect any part of the body, mimicking the clinical pictures of other diseases, it has often been confused, in patients with otorhinolaryngological manifestations, especially with recurrent polychondritis. Knowledge by the otolaryngologist of the head and neck manifestations associated with it can contribute to early diagnosis and treatment, improving the prognosis of the disease.

**KEYWORDS:** VESAS syndrome; otorhinolaryngology; ear chondritis; nasal chondritis; neurosensory hearing loss.

## INTRODUCCIÓN

El síndrome VEXAS (vacuolas, E1 enzyme, X-linked, autoinflamatory, somatic) es una entidad clínica de reciente descripción caracterizada por presentar manifestaciones cutáneas, autoinflamatorias y anomalías hematológicas [1].

Este síndrome debuta en la edad adulta como consecuencia de mutaciones somáticas en el gen UBA1 en células progenitoras hematopoyéticas, y se localiza en el brazo corto del cromosoma X codificando la enzima activadora de ubiquitina E1, implicada en la degradación celular de proteínas [1].

El síndrome VEXAS cursa con inflamación sistémica que da lugar a múltiples manifestaciones sobre todo dermatológicas y hematológicas. Como consecuencia puede simular diferentes entidades clínicas como el síndrome de Sweet, policondritis recidivante (PR) o artritis reumatoide [2, 3, 4]. Dentro de las manifestaciones hematológicas son características la aparición de

vacuolas citoplasmáticas en promielocitos, mielocitos, precursores eritroides y blastos de la médula ósea [1].

La afectación de cabeza y cuello es frecuente en el síndrome VEXAS, sobre todo la condritis auricular y nasal. Sin embargo, otras manifestaciones de dicha área no están claramente establecidas [3-5]. Estos pacientes habitualmente eran diagnosticados de PR [1].

Dado que las manifestaciones otorrinolaringológicas pueden constituir la primera forma de presentación de la enfermedad, nuestro objetivo es describir dichas manifestaciones en los pacientes con síndrome VEXAS para contribuir a un diagnóstico temprano de la enfermedad.

## MATERIAL Y MÉTODO

Revisión sistemática de las manifestaciones otorrinolaringológicas de los casos publicados de síndrome VEXAS. La búsqueda concluyó el 31 de diciembre de 2022. La base de datos consultada

para su realización fue PubMed. Para llevar a cabo la búsqueda se empleó el término *Vexas Syndrome*.

La presente revisión fue realizada siguiendo las directrices de las guías PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses*) con modificaciones adaptadas al tipo de estudio.

Los criterios de inclusión que fueron empleados para los casos seleccionados en esta revisión sistemática: artículos publicados desde 2020 (año de descripción del síndrome VEXAS) hasta 31 de diciembre de 2022, idioma español, francés o inglés y diagnóstico confirmado genéticamente del síndrome VEXAS.

Los criterios de exclusión fueron diagnóstico confirmado de otra enfermedad excluyendo el síndrome VEXAS, artículos de revisión sin inclusión de casos clínicos o sin descripción pormenorizada de los mismos.

Los datos fueron extraídos por el autor principal siendo revisados por un especialista en área de la otorrinolaringología, de acuerdo con los criterios previamente establecidos. Se analizaron todos los resúmenes y títulos de la investigación resultantes de la búsqueda inicial. Una vez realizado el screening inicial, se procedió a investigar el texto completo de los artículos seleccionados.

Una vez seleccionados los artículos incluidos en la presente revisión, se realizó un análisis de los casos clínicos para extraer los siguientes datos: sexo y edad del paciente, síntomas principales otorrinolaringológicos, si la afectación otorrinolaringológica fue el síntoma de debut de la enfermedad, histopatología (si esta fue realizada en el área de cabeza y cuello) y lugar de obtención de biopsia, y diagnósticos diferenciales considerados por los autores del artículo.

## RESULTADOS

Tras la revisión sistemática de artículos publicados de síndrome VEXAS (Figura 1), en 81 se describían de forma pormenorizada la sintomatología de un total de 133 pacientes. Del total de casos

descritos, 91 pacientes presentaban manifestaciones de cabeza y cuello, esto constituye un 68,4 % de los casos publicados de síndrome VEXAS con descripción individual de la sintomatología.

La edad de los pacientes con afectación otorrinolaringológica osciló entre 46 y 83 años con una mediana de 68. El 98,5 % de los casos descritos fueron varones. La manifestación de cabeza y cuello más frecuente fue la condritis: auricular (61,5 %), nasal (23 %) o no especificada (18,7%). Otras manifestaciones menos frecuentes fueron el edema periorbitario (18,7 %) y la condritis laringo-traqueal (12 %). Mucho menos frecuente fueron las adenopatías cervicales (7,7 %), las aftas orales (5,5%), la parotiditis (4,4%), la hipoacusia neurosensorial (HNS) (4,4%), la afectación de la articulación temporomandibular (3,3%), la sinusitis (3,3%) y las úlceras nasales (3,3%) con perforación septal en uno de los casos [55].

Considerando los artículos incluidos en la revisión, incluyendo los casos sin afectación de cabeza y cuello, el 56,4 % del total de pacientes con síndrome VEXAS presentan condritis, ya sea auricular, nasal o laringotraqueal. Si solo consideramos a los pacientes que presentaron manifestaciones de cabeza y cuello, la condritis estuvo presente en el 82,4%.

En el 25,6 % de los casos descritos, las manifestaciones otorrinolaringológicas aparecieron dentro del cuadro de presentación de la enfermedad (sobre todo condritis auricular), pero siempre asociadas a otra sintomatología sistémica como lesiones cutáneas (síndrome de Sweet), manifestaciones hematológicas (síndrome mielodisplásico sobre todo), síndrome febril, afectación ocular (uveítis, episcleritis) u osteoarticular entre otras. Los datos de los artículos incluidos con manifestaciones de cabeza y cuello se resumen en la Tabla 1 (Anexo 1).

## DISCUSIÓN

El síndrome VEXAS afecta fundamentalmente a varones mayores de 50 años. La mayoría de los casos descritos en esta revisión se produjeron en

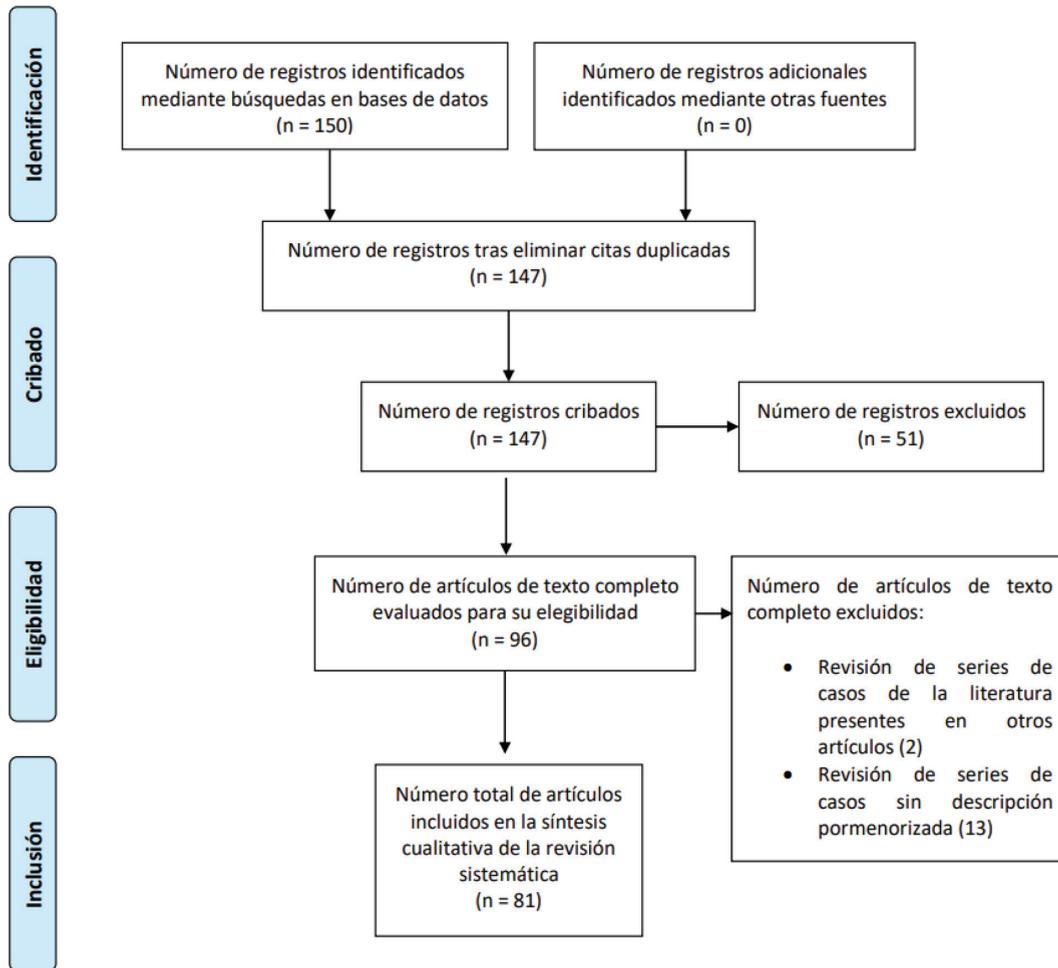


Figura 1. Resultados de la búsqueda bibliográfica sobre síndrome VEXAS.

varones de entre 50 y 80 años, aunque hay algún caso descrito que debutó en la 4ª década [6, 7, 54]. El hecho de que aparezca mayoritariamente en varones, se debe a que el gen UBA1 se encuentra en el cromosoma X y se postula que, en las mujeres, el alelo no mutado ejerce un efecto protector, ya que el gen UBA1, en condiciones normales, no está sometido al fenómeno de inactivación. Aun así, se han reportado 7 casos en mujeres [5, 45, 49, 40]. La

causa más frecuente por la que este síndrome puede aparecer en el sexo femenino es el mosaicismo del cromosoma X, fenómeno relacionado con la edad. Otras causas menos frecuentes son el síndrome de Turner, la disomía uniparental y la inactivación sesgada del cromosoma x [44, 45].

Los pacientes con síndrome VEXAS pueden debutar con sintomatología otorrinolaringológica (condritis auricular/nasal, adenopatías cervicales

necróticas, hipoacusia neurosensorial, parotiditis, laringitis o aftas orales) con cierta frecuencia, como se observa en esta revisión, en la cuarta parte de los casos, habitualmente asociada a sintomatología sistémica, pudiendo ser clave (sobre todo la condritis) para la sospecha de síndrome VEXAS en cuadros abigarrados de difícil etiqueta inicial y evitar, como suele ser frecuente, que se retrase el diagnóstico de estos pacientes durante meses o incluso años.

Con cierta frecuencia algunos pacientes presentan durante años condritis recurrente (nasal, auricular o ambas) y son diagnosticados de una PR. La aparición posterior de otra sintomatología, sobre todo hematológica reorienta el diagnóstico posterior de dichos pacientes tras la descripción de la enfermedad y la posibilidad de confirmar la aparición de la misma mediante estudio genético.

En otras ocasiones, la condritis auricular y/o nasal aparece en pacientes que han sido previamente diagnosticados de una enfermedad hematológica (síndrome mielodisplásico principalmente), cutánea (síndrome de Sweet) o tienen antecedentes de vasculitis (vasculitis leucocitoclástica, arteritis de células gigantes, poliarteritis nodosa o poliangeítis microscópica) o con menos frecuencia de artritis reumatoide o enfermedad de Still de inicio en edad adulta. En estos casos, deberíamos plantearnos el síndrome VEXAS como diagnóstico diferencial, especialmente en pacientes cuyas manifestaciones reumatológicas han sido refractarias al tratamiento [18].

Así mismo, ante la aparición de condritis junto con otras manifestaciones sistémicas como fiebre, pérdida involuntaria de peso, artralgias, astenia, afectación cutánea (dermatosis neutrofilica como hallazgo más frecuente), vasculitis o alteraciones hematológicas, especialmente en un varón de edad avanzada, debe tenerse en cuenta el síndrome VEXAS como posible diagnóstico.

Tsuchida et al encontraron en un grupo de 14 pacientes previamente diagnosticados de PR, que 8 de ellos eran portadores de mutaciones en el gen

UBA1, y, por tanto, fueron etiquetados posteriormente como pacientes con síndrome VEXAS [49].

Por tanto, en los pacientes con condritis auricular y/o nasal recurrente sin una causa clara, debemos pensar no solo en una PR sino en un síndrome VEXAS, por lo que es necesario la realización de una interconsulta a reumatología o hematología, y valorar la realización de un estudio genético buscando mutaciones en el gen UBA1.

En las descripciones iniciales del síndrome VEXAS (22) se afirmaba que a diferencia de la PR en el síndrome VEXAS no había afectación laringotraqueal; sin embargo, aunque mucho menos frecuente que la afectación auricular y nasal (algo que también ocurre en la PR) el síndrome VEXAS puede afectar a la laringe y tráquea como se demuestra en el 12% de los casos con manifestaciones de cabeza y cuello publicados de esta revisión. Por tanto, la afectación laringotraqueal no puede ser utilizada como un criterio para descartar síndrome VEXAS y pensar en una PR.

La forma de afectación laríngea descrita en nuestra revisión va desde la aparición de un cuadro de laringitis [9, 21, 48], la presencia de edema subglótico severo precisando el paciente ingreso en UCI [53], hasta una necrosis de la epiglotis [55]. En uno de los casos se describió disfonía en el debut sin poder precisar si se debía a la presencia de condritis laringotraqueal [16]. Otras formas de afectación laríngea no han sido descritas de forma pormenorizada.

En una serie de casos francesa de 95 pacientes se dividió a los mismos en dos cohortes, una de 55 pacientes con síndrome VEXAS y otra con 40 pacientes con PR. A partir de los datos obtenidos de esta serie, podemos establecer diferencias entre ambas entidades. Los pacientes con síndrome VEXAS eran mayoritariamente varones (96%), mientras que en la cohorte de pacientes con PR solo un 30 %. Entre las manifestaciones sistémicas que fueron más frecuentes en los pacientes con síndrome VEXAS que con PR, destacan la fiebre (60% vs 10%); la afectación ocular en (28% vs 15%);

las lesiones cutáneas (82% vs 20%); los infiltrados pulmonares (46% vs 0%); y las alteraciones hematológicas, fundamentalmente en forma de síndrome mielodisplásico (75% vs 0%). Los hallazgos que fueron más frecuentes en la cohorte de pacientes con PR que en la cohorte de pacientes con síndrome VEXAS, fueron la costocondritis (25% vs 12%) y la condritis de las vías respiratorias grandes (45% vs 25%), aunque como se ha mencionado previamente, estas manifestaciones no nos permiten discriminar entre síndrome VEXAS y PR porque pueden aparecer en ambas entidades [60]. Además, los pacientes con síndrome VEXAS y clínica de condritis presentan mayores tasas de mortalidad y peor respuesta al tratamiento que los pacientes con PR [61].

La presencia de edema periorbitario, en algunos casos severo, es un síntoma relativamente frecuente que se ha descrito en 17 de los casos aquí revisados [7, 8] y en algunas series ha representado un porcentaje significativo, oscilando entre un 8,6% y un 33% [60, 62, 64, 65, 66]. También, se han descrito algunos casos de angioedema facial [8, 53].

Las adenopatías cervicales pueden constituir el primer síntoma de presentación de los pacientes con síndrome VEXAS o pueden aparecer en el curso de la enfermedad. En nuestra revisión, esta manifestación se describe en 7 pacientes [3, 6, 25, 44, 51, 58]. Se han publicado varios casos (2 en la presente revisión) de pacientes inicialmente diagnosticados de la enfermedad de Kikuchi Fujimoto tras biopsia de una adenopatía cervical, que posteriormente se confirmó que tenían un síndrome VEXAS [3, 58]. Por tanto, en pacientes con sospecha de enfermedad de Kikuchi-Fujimoto que desarrollan otros síntomas cutáneos, hematológicos o reumatológicos, se deben descartar mutaciones en el gen UBA1.

La presencia de aftas orales y genitales habitualmente nos hace sospechar un síndrome de Behçet o enfermedades autoinflamatorias como las relacionadas con NLRP3; sin embargo, en cinco de los pacientes con síndrome VEXAS descritos

en la literatura, aparecieron aftas en el debut o en el curso de la enfermedad (dos de ellos tuvieron aftas orales y genitales, otro tuvo solo aftas orales y otros dos tuvieron aftas no especificadas) [6, 10, 25, 31, 36].

El síndrome VEXAS puede producir alteraciones en el sistema nervioso, en concreto, en otorrinolaringología puede manifestarse como HNS. Aunque en el grupo inicial de pacientes con síndrome VEXAS en el que se describió la enfermedad, Beck y cols. encontraron HNS en 10/16 pacientes (66%) (1), en estudios posteriores y en los resultados obtenidos en nuestra revisión, este síntoma es mucho menos frecuente apareciendo solo en 4 pacientes (4,4% de los pacientes con manifestaciones otorrinolaringológicas) [5, 25, 42, 54], en dos de ellos como debut [5, 42] y en otros dos a lo largo del curso de la enfermedad [25, 54]. En cuanto a las series de casos revisadas, la HNS estuvo presente en el 16% de los pacientes descritos en la serie de Khitri y cols. [60] y en el 29% de los pacientes descritos en la serie de Ferrada y cols. [62]. También se han descrito casos de disfunción vestibular, manifestándose en el 8% de los pacientes de la serie de Khitri y cols. [60] y en uno de los pacientes descritos por Tsuchida y cols. [49].

La parotiditis es una manifestación poco habitual del síndrome VEXAS, que ha sido descrita en 4 casos de la literatura [15, 21, 51,], en uno de ellos, como debut junto con laringitis [31]. Esto es importante tenerlo en cuenta, porque la presencia de afectación glandular en forma de parotiditis, dacrioadenitis o inflamación de la glándula submandibular ha llevado en algunos casos al diagnóstico inicial de enfermedad relacionada con IgG4 (en 3 de los casos descritos en nuestra revisión) [8, 51].

Puesto que la artritis es una de las manifestaciones del síndrome VEXAS, puede verse afectada la articulación temporomandibular, presentándose en forma de dolor mandibular recurrente. No aparece con frecuencia, pero se ha identificado en 3 de los casos descritos en la literatura [8, 32, 59].

La sinusitis no es una manifestación habitual en el síndrome VEXAS, sin embargo, aparece en 3 de los casos descritos en nuestra revisión, en dos de ellos como debut [52, 63]. En algunos pacientes se han descrito manifestaciones de cabeza y cuello relacionadas con vasculitis, como la presencia de epistaxis y costras nasales [51] o la perforación septal y necrosis epiglótica [55].

En la Tabla 2 se recogen las manifestaciones de síndrome VEXAS descritos en la literatura por orden de frecuencia.

Por otra parte, ha sido publicado un caso de un paciente que contrajo una infección por el virus SARS-CoV-2 8 meses antes de debutar con síndrome VEXAS y parece que podría predisponer a desarrollar este síndrome debido a que este virus puede alterar el gen UBA1, cuya mutación es imprescindible para el desarrollo de la enfermedad [42].

En algunos pacientes se practicó una biopsia del área otorrinolaringológica, sobre todo del cartilago auricular, sin encontrarse hallazgos que contribuyesen al diagnóstico de la enfermedad. [21, 31, 37, 49, 51, 52, 58].

El diagnóstico en todos los casos se realizó mediante un estudio genético a partir de una muestra de sangre o una biopsia de médula ósea.

Si analizamos los resultados de nuestra revisión y la comparamos con las series de casos previamente descritas que ponen su énfasis en manifestaciones no otorrinolaringológicas del síndrome VEXAS, podemos ver que coinciden en que la manifestación de cabeza y cuello más frecuente es la condritis, sobre todo la condritis auricular (61,5% en nuestra revisión vs 31,9-94% en otras series) [60, 64], que la condritis nasal (23% vs 15,5 - 47%) [60, 64, 66], y en último lugar, la condritis laringo-traqueal (12% vs 2-25%) [62, 64]. En nuestra revisión el edema peri orbitario ha constituido una manifestación relativamente frecuente (18,7%), mientras que en las series previamente descritas ha sido una manifestación variable en cuanto a su frecuencia (8,6-33%) [64, 65]. Respecto a las adenopatías cervicales, en nuestra revisión se describe en un 7,7% de los pacientes con manifestaciones otorrinolaringológicas, un porcentaje muy similar al encontrado en la serie de Georjin-laville y cols (6,9%) [64]. Sin embargo, la HNS ha sido descrita en un 4,4 % de los pacientes con manifestaciones otorrinolaringológicas de nuestro estudio, mientras que en otras series ha llegado a estar presente en un 0-29% de los pacientes [60, 62].

Como limitaciones de nuestro estudio debemos reseñar que solamente se realizó una búsqueda bibliográfica en la base de datos PubMed. Por otra parte, al tratarse de una entidad clínica de reciente descripción se precisan estudios más extensos que se centren en las manifestaciones de cabeza y cuello, que puedan contribuir a delimitar de una manera más exacta las manifestaciones otorrinolaringológicas menos habituales de este síndrome.

## CONCLUSIONES

El síndrome VEXAS es un proceso autoinflamatorio de reciente descripción que presenta con

Tabla 2. Manifestaciones ORL descritas en el síndrome VEXAS según su frecuencia.

Condritis auricular ***
Condritis nasal **
Edema periorbitario **
Afectación laríngea (edema, necrosis cartilaginosa) *
Adenopatías laterocervicales (en ocasiones dolorosas) *
Aftas orales *
Hipoacusia neurosensorial *
Parotiditis *
Angioedema facial *
Otras: afectación vestibular, perforación septal, costras nasales, sinupatía, algia facial, nariz en silla de montar...

\*\*\* Frecuente (>50%)

\*\* Relativamente frecuente (>15%)

\*Poco frecuente

frecuencia manifestaciones del área otorrinolaringológica, que en ocasiones pueden constituir el síntoma o signo de debut de la enfermedad, y en otras pueden aparecer en el trascurso de la misma. Debemos sospechar el síndrome VEXAS, sobre todo, en pacientes varones de más de 50 años de edad, que presenten síntomas de cabeza y cuello (condritis auricular, nasal y/o laringotraqueal o edema periorbitario), generalmente acompañados de otras manifestaciones sistémicas; habitualmente hematológicas, dermatológicas, osteoarticulares y síndrome general (fiebre, astenia, pérdida involuntaria de peso).

Al tratarse de un cuadro de reciente descripción, cuando aparecen manifestaciones de cabeza y cuello, con frecuencia es confundido con una PR. El conocimiento por parte del otorrinolaringólogo de las manifestaciones de cabeza y cuello asociadas al síndrome VEXAS, puede contribuir a un diagnóstico y tratamiento temprano el mismo.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Beck DB, Ferrada MA, Sikora KA, Ombrello AK, Collins JC, Pei W, et al. Somatic mutations in UVA1 and severe adult-onset autoinflammatory disease. *N Engl J Med* 2020;383:2628-2638. <https://doi.org/10.1056/NEJMoa2026834>
2. Ciferska H, Gregová M, Klein M, Šenolt L, Soukupová Maaloufová J, Pavelka K, et al. VEXAS syndrome: a report of three cases. *Clin Exp Rheumatol*. 2022;40(7):1449. <https://doi.org/10.55563/clinexprheumatol/3z07e9>.
3. Lee SMS, Fan BE, Lim JH, Goh LL, Lee JSS, Koh LW. A case of VEXAS syndrome manifesting as Kikuchi-Fujimoto disease, relapsing polychondritis, venous thromboembolism and macrocytic anaemia. *Rheumatology* 2021;60:e304-e306. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab200>
4. Beaumesnil S, Boucher S, Lavigne C, Urbanski G, Lacombe V. Ear, Nose, Throat, and Bronchial Involvements in VEXAS Syndrome: Specifying the Spectrum of Clinical Features. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2022 Mar 1;148(3):284-286. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2021.4092>.
5. Barba T, Jamilloux Y, Durel CA, Bourbon E, Mestrallet F, Sujobert P, et al. VEXAS syndrome in a woman. *Rheumatology (Oxford)*. 2021 Nov 3;60(11):e402-e403. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab392>.
6. Diarra A, Duployez N, Fournier E, Preudhomme C, Coiteux V, Magro L, et al. Successful allogeneic hematopoietic stem cell transplantation in patients with VEXAS syndrome: a 2-center experience. *Blood Adv*. 2022 Feb 8;6(3):998-1003. <https://doi.org/10.1182/bloodadvances.2021004749>.
7. Al-Hakim A, Poulter JA, Mahmoud D, Rose AMS, Elcombe S, Lachmann H, et al. Allogeneic haematopoietic stem cell transplantation for VEXAS syndrome: UK experience. *Br J Haematol*. 2022;199(5):777-781. <https://doi.org/10.1111/bjh.18488>.
8. Beecher MB, Tong JY, Halliday LA, Hissaria P, Selva D. Recurrent orbital inflammation associated with VEXAS syndrome. *Orbit*. 2022 Sep 27:1-4. <https://doi.org/10.1080/01676830.2022.2126501>.
9. Bert-Marcuz C, Briantais A, Faucher B, Corazza G, Ebbo M, Attarian S, et al. Expanding the spectrum of VEXAS syndrome: association with acute-onset CIDP. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2022;93(7):797-798. <https://doi.org/10.1136/jnnp-2021-327949>.
10. Campochiaro C, Tomelleri A, Cavalli G, De Luca G, Grassini G, Cangi MG, et al. Successful use of cyclosporin A and interleukin-1 blocker combination therapy in VEXAS syndrome: a single-center case series. *Arthritis Rheumatol*. 2022;74(7):1302-1303. <https://doi.org/10.1002/art.42101>.
11. Ciprian G. Adverse Reaction to COVID-19 mRNA Vaccination in a Patient With VEXAS Syndrome. *Cureus*. 2022 Mar 24;14(3):e23456. <https://doi.org/10.7759/cureus.23456>.
12. Dehghan N, K Marcon KM, Sedlic T, Beck DB, Dutz JP, Chen LYC. Vacuoles, E1 enzyme, X-linked, autoinflammatory, somatic (VEXAS) syndrome: fevers, myalgia, arthralgia, auricular chondritis,

- and erythema nodosum. *Lancet* 2021; 398: 621. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(21\)01430-6](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(21)01430-6).
13. Escoda T, Farnault L, Gallard J, Marceau-Renaut A, Attarian S, Delmont E. Azacitidine, a therapeutic option in Lewis and Sumner syndrome associated with VEXAS syndrome. *Rev Neurol (Paris)*. 2022;178(10):1109-1111. <https://doi.org/10.1016/j.neurol.2022.06.008>.
  14. Euvrard R, Fournier T, Georgescu D, Bourbon E, Sujobert P, Lega JC, et al. VEXAS syndrome-related AA amyloidosis: a case report. *Rheumatology (Oxford)* 2021;24;61(1):e15-e16. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab683>.
  15. Goyal A, Narayanan D, Wong W, Laga AC, Connell NT, Ritter SY, et al. Tocilizumab for treatment of cutaneous and systemic manifestations of vacuoles, E1 enzyme, X-linked, autoinflammatory, somatic (VEXAS) syndrome without myelodysplastic syndrome. *JAAD Case Rep*. 2022 Mar 2;23:15-19. <https://doi.org/10.1016/j.jdcr.2022.02.022>.
  16. Grey A, Cheong PL, Lee FJ, Abadir E, Favaloro J, Yang S, et al. A Case of VEXAS Syndrome Complicated by Hemophagocytic Lymphohistiocytosis. *J Clin Immunol* 2021;41(7):1648-1651. <https://doi.org/10.1007/s10875-021-01070-y>
  17. Grosse A, Salehi T, Callary M, Hecker JR, Hissaria P. VEXAS syndrome causing fever of unknown origin. *Med J Aust*. 2022 Aug 1;217(3):129-130. <https://doi.org/10.5694/mja2.51646>.
  18. Guerrero-Bermúdez CA, Cardona-Cardona AF, Ariza-Parra EJ, Arostegui JI, Mensa-Vilaro A, Yague J, et al. Vacuoles, E1 enzyme, X-linked, autoinflammatory, somatic syndrome (VEXAS syndrome) with prominent supraglottic larynx involvement: a case-based review. *Clin Rheumatol*. 2022;41(11):3565-3572. <https://doi.org/10.1007/s10067-022-06338-1>.
  19. Gunnarsson K, Vivar Pomiano N, Tesi B, Tobiasson M, Creignou M, Ungerstedt J. VEXAS – nytt autoinflammatoriskt syndrom med bred symtombild [Two cases of VEXAS syndrome]. *Lakartidningen*. 2022 sep 7;119:22024. Swedish. PMID: 36082915.
  20. Holmes A, Thant A, Correy R, Vilain R. Inflammatory pseudotumour arising secondary to VEXAS syndrome. *Pathology*. 2022 Jun 27:S0031-3025(22)00184-2. <https://doi.org/10.1016/j.pathol.2022.04.011>.
  21. Islam S, Cullen T, Sumpton D, Damodaran A, Heath D, Bosco A, et al. VEXAS syndrome: lessons learnt from an early Australian case series. *Intern Med J* 2022;52(4):658-662. <https://doi.org/10.1111/imj.15742>.
  22. Koster M, Kourelis T, Reichard KK, Kermani TA, Beck DB, Cardona DO. Clinical Heterogeneity of the VEXAS Syndrome: A Case Series *Mayo Clin Proc*. 2021;96:2653-2659. [doi.org/10.1016/j.mayocp.2021.06.006](https://doi.org/10.1016/j.mayocp.2021.06.006).
  23. Lacombe V, Prevost M, Bouvier A, Thepot S, Chabrun F, Kosmider O, et al. Vacuoles in neutrophil precursors in VEXAS syndrome: diagnostic performances and threshold. *Br J Haematol*, 2021;195:276–292. <https://doi.org/10.1111/bjh.17679>
  24. Legeas C, Saucereau J, Saraux A, Schoenlaub P. VEXAS syndrome: A first case without any haematological abnormalities. *Joint Bone Spine*. 2022 Oct 20;90(1):105473. <https://doi.org/10.1016/j.jbspin.2022.105473>.
  25. Lucchino B, Finucci A, Ghellere F, Bortolotti ME, Tedesco A, Lombardi S. Influence of HLA polymorphisms on clinical features of VEXAS syndrome: a potential epistatic mechanism. *Rheumatology (Oxford)*. 2022 Dec 23;62(1):e7-e8. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keac371>.
  26. Magnol M, Couvaras L, Degboé Y, Delabesse E, Bulai-Livideanu C, Ruysen-Witrand A, et al. VEXAS syndrome in a patient with previous spondyloarthritis with a favourable response to intravenous immunoglobulin and anti-IL17 therapy. *Rheumatology* 2021;1;60(9):e314-e315. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab211>.
  27. Mangaonkar AA, Langer KJ, Lasho TL, Finke C, Litzow MR, Hogan WJ, et al. Reduced intensity conditioning allogeneic hematopoietic stem cell transplantation in VEXAS syndrome: Data from a prospective series of patients. *Am J Hematol*. 2023;98:E28-E31. <https://doi.org/10.1002/ajh.26786>.
  28. Manzoni M, Bosi A, Fabris S, Lionetti M, Salerio S, Migliorini AC, et al. Clinical, Morphological

- and Clonal Progression of VEXAS Syndrome in the Context of Myelodysplasia Treated with Azacytidine. *Clin Hematol Int.* 2022 May 12;4(1-2):52-55. <https://doi.org/10.1007/s44228-022-00002-w>.
29. Martín-Nares E, Vargas-Serafín C, Delgado-de la Mora J, Montante-Montes de Oca D, Grayson PC, Larios E, et al. Orbital and periorbital inflammation in VEXAS syndrome. *Scand J Rheumatol.* 2022;51(4):338-341. <https://doi.org/10.1080/0309742.2022.2045791>.
  30. Matsuki Y, Kawai R, Suyama T, Katagiri K, Kanazawa N, Inaba Y. A case of VEXAS syndrome with myositis possibly associated with macrophage activation syndrome. *J Dermatol.* 2022;49(12):e441-e443. <https://doi.org/10.1111/1346-8138.16535>.
  31. Matsumoto H, Fujita Y, Fukatsu M, Ikezoe T, Yokose K, Asano T, et al. Case Report: Coexistence of Multiple Myeloma and Auricular Chondritis in VEXAS Syndrome. *Front Immunol.* 2022 Jun 9;13:897722. <https://doi.org/10.3389/fimmu.2022.897722>.
  32. Midtvedt Ø, Stray-Pedersen A, Andersson H, Gunnarsson R, Tveten K, Ali MM, et al. A man in his sixties with chondritis and bone marrow failure. *Tidsskr Nor Laegeforen.* 2022 Feb 28;142(4). <https://doi.org/10.4045/tidsskr.21.0370>.
  33. Mohammed TO, Alavi A, Aghazadeh N, Koster MJ, Olteanu H, Mangaonkar AA, et al. Vacuoles, E1 enzyme, X-linked, autoinflammatory, somatic (VEXAS) syndrome: a presentation of two cases with dermatologic findings. *Int J Dermatol.* 2022 Mar 1. <https://doi.org/10.1111/ijd.16132>.
  34. Muratore F, Marvisi C, Castrignanò P, Nicoli D, Farnetti E, Bonanno O, et al. VEXAS Syndrome: A Case Series From a Single-Center Cohort of Italian Patients With Vasculitis. *Arthritis Rheumatol.* 2022;74(4):665-670. <https://doi.org/10.1002/Art.41992>.
  35. Neupane K, Jayarangaiah A, Zhang Y, Kumar A. VEXAS syndrome with progression of MDS to MDS/MPN overlap syndrome. *BMJ Case Rep.* 2022 Dec 22;15(12):e251089. <https://doi.org/10.1136/bcr-2022-251089>.
  36. Nguyen JK, Routledge D, van Der Weyden C, Blombery P, Angel CM, Johnson D, et al. VEXAS syndrome: A dermatological perspective. *Australas J Dermatol.* 2022;63(4):488-492. <https://doi.org/10.1111/ajd.13932>.
  37. Pathmanathan K, Taylor E, Balendra J, Lim A, Carroll G. VEXAS syndrome: favourable clinical and partial haematological responses to subcutaneous abatacept therapy with 30-month follow-up. *Rheumatology (Oxford).* 2022 Jul 6;61(7):e174-e177. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keac054>.
  38. Pàmies A, Ferràs P, Bellaubí-Pallarés N, Giménez T, Raventós A, Colobran R. VEXAS syndrome: relapsing polychondritis and myelodysplastic syndrome with associated immunoglobulin A vasculitis. *Rheumatology (Oxford).* 2022 Mar 2;61(3):e69-e71. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab782>.
  39. Perlot Q, Cabo J, Jacqmin H, Depaus J. Un érythème et des anomalies sanguines [Erythema and blood abnormality]. *Rev Med Interne.* 2022 Sep 30;S0248-8663(22)00640-3. French. <https://doi.org/10.1016/j.revmed.2022.09.006>.
  40. Poulter J; UKGCA/VEXAS Consortium; Morgan A, Cargo C, Savic S. A High-Throughput Amplicon Screen for Somatic UBA1 Variants in Cytopenic and Giant Cell Arteritis Cohorts. *J Clin Immunol.* 2022;42(5):947-951. <https://doi.org/10.1007/s10875-022-01258-w>.
  41. Raaijmakers MHGP, Hermans M, Aalbers A, Rijken M, Dalm VASH, Daele P, et al. Azacytidine Treatment for VEXAS Syndrome. *HemaSphere.* 2021;5:12(e661). <http://dx.doi.org/10.1097/HS9.0000000000000661>
  42. Rivera EG, Patnaik A, Salvemini J, Jain S, Lee K, Lozeau D, et al. SARS-CoV-2/COVID-19 and its relationship with NOD2 and ubiquitination. *Clin Immunol.* 2022;238:109027. <https://doi.org/10.1016/j.clim.2022.109027>.
  43. Sakuma M, Tanimura A, Yasui S, Ishiguro K, Kobayashi T, Ohshiro Y, et al. A Case of polychondritis-onset refractory organizing pneumonia with cytopenia diagnosed as VEXAS syndrome: the disease course of 7 years. *Rheumatology* 2021;60:356-359. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab349>.

44. Staels F, Betrains A, Sherida FJ, Woei-A-Jin H, Boeckx N, Beckers M, et al. Case Report: VEXAS Syndrome: From Mild Symptoms to Life-Threatening Macrophage Activation Syndrome. *Front Immunol.* 2021; 12: 678927. <https://doi.org/10.3389/fimmu.2021.678927>
45. Stubbins RJ, McGinnis E, Johal B, Chen LY, Wilson L, Cardona DO, et al. VEXAS syndrome in a female patient with constitutional 45,X (Turner syndrome). *Haematologica.* 2022 Apr 1;107(4):1011-1013. <https://doi.org/10.3324/haematol.2021.280238>.
46. Takahashi N, Takeichi T, Nishida T, Sato J, Takahashi Y, Yamamura M, et al. Extensive Multiple Organ Involvement in VEXAS Syndrome. *Arthritis Rheumatol* 2021;73(10):1896-1897. <https://doi.org/10.1002/art.41775>
47. Templé M, Duroyon E, Croizier C, Rossignol J, Huet T, Friedrich C, et al. Atypical splice-site mutations causing VEXAS syndrome *Rheumatology (Oxford)* 2021 Dec 1;60(12):e435-e437. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keab524>.
48. Topilow JS, Ospina Cardona D, Beck DB, Ferrada MA, McMahan ZH, et al. Novel genetic mutation in myositis-variant of VEXAS syndrome. *Rheumatology (Oxford)*. 2022 Nov 28;61(12):e371-e373. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keac356>.
49. Tsuchida N, Kunishita Y, Uchiyama Y, Kirino Y, Enaka M, Yamaguchi Y, et al. Pathogenic UBA1 variants associated with VEXAS syndrome in Japanese patients with relapsing polychondritis. *Ann Rheum Dis* 2021;80:1057-1061. <https://doi.org/10.1136/annrheumdis-2021-220089>
50. Uchino K, Kanasugi J, Enomoto M, Kitamura F, Tsuchida N, Uchiyama Y, et al. Vexas síndrome. *Int J Hematol.* 2022 Oct;116(4):463-464. <https://doi.org/10.1007/s12185-022-03448-z>.
51. van der Made CI, Potjewijd J, Hoogstins A, Willems HPJ, Kwakernaak AJ, de Sevaux RGL, et al. Adult-onset autoinflammation caused by somatic mutations in UBA1: A Dutch case series of patients with VEXAS. *J Allergy Clin Immunol.* 2022;149(1):432-439.e4. <https://doi.org/10.1016/j.jaci.2021.05.014>.
52. van Leeuwen-Kerkhoff N, de Witte MA, Heijstek MW, Leavis HL. Case report: Up-front allogeneic stem cell transplantation in a patient with the VEXAS syndrome. *Br J Haematol.* 2022;199(3):e12-e15. <https://doi.org/10.1111/bjh.18424>.
53. Varadarajan A, Verghese R, Tirlangi PK, Dass J, Soneja M, Seth T. VEXAS syndrome (vacuoles, E1 enzyme, X-linked, autoinflammatory, somatic). *QJM.* 2022 Nov 21;hcac259. <https://doi.org/10.1093/qjmed/hcac259>.
54. Wilke MVMB, Morava-Kozicz E, Koster MJ, Schmitz CT, Foster SK, Patnaik M, et al. Exome sequencing can misread high variant allele fraction of somatic variants in UBA1 as hemizygous in VEXAS syndrome: a case report. *BMC Rheumatol.* 2022 Aug 30;6(1):54. <https://doi.org/10.1186/s41927-022-00281-z>.
55. Wilson NR, Jain P, Gomez JA, Lu H, Pemmaraju N. Concurrent myelodysplasia and monoclonal B lymphocytosis in VEXAS syndrome. *Leuk Res.* 2022;120:106909. <https://doi.org/10.1016/j.leukres.2022.106909>.
56. Yamaguchi H, Kobayashi D, Nakamura G, Aida R, Horii Y, Okamoto T, et al. Acute heart failure due to left common iliac arteriovenous fistula: A case of VEXAS syndrome. *Mod Rheumatol Case Rep.* 2022 Oct 20;rxac082. <https://doi.org/10.1093/mrcr/rxac082>.
57. Yildirim F, Erdogan M, Yalcin Mutlu M, Akkuzu G, Ozgur DS, Karaalioglu B, et al. VEXAS syndrome with severe multisystem involvement: Rapid recovery after splenectomy. *Int J Rheum Dis.* 2022;26:559-562. <https://doi.org/10.1111/1756-185X.14540>.
58. Yılmaz U, Güner S, Eşkazan T, Demiröz AS, Kurtuluş G, Bahar F, et al. Kikuchi Fujimoto disease as the presenting component of VEXAS syndrome: a case report of a probable association. *Clin Rheumatol.* 2022;41(11):3589-3592. <https://doi.org/10.1007/s10067-022-06331-8>.
59. Zeeck M, Kötter I, Krusche M. VEXAS-Syndrom [VEXAS syndrome]. *Z Rheumatol.* 2022;81(9):782-786. <https://doi.org/10.1007/s00393-022-01169-6>.
60. Khitri MY, Guedon AF, Georgin-Lavialle S, Terrier B, Saadoun D, Segulier J, et al. French VEXAS group and MINHEMON. Comparison

- between idiopathic and VEXAS-relapsing polycondritis: analysis of a French case series of 95 patients. *RMD Open*. 2022;8(2):e002255. <https://doi.org/10.1136/rmdopen-2022-002255>.
61. Ferrada MA, Sikora KA, Luo Y, Wells KV, Patel B, Groarke EM, et al. Somatic mutations in *UBA1* define a distinct subset of relapsing polycondritis patients with VEXAS. *Arthritis Rheumatol*. 2021;73:1886-95). <https://doi.org/10.1002/art.41743>
62. Ferrada MA, Savic S, Ospina Cardona D, Collins JC, Alessi H, Gutierrez-Rodriguez F, et al. Translation of cytoplasmic *UBA1* contributes to VEXAS syndrome pathogenesis. *Blood*. 2022. Sep 29;140(13):1496-1506. <https://doi.org/10.1182/blood.2022016985>
63. Diarra A, Duployez N, Terriou L. Mutant *UBA1* and severe adult-onset autoinflammatory disease. *N Engl J Med*. 2021;384(22):2163–2164. <https://doi.org/10.1056/NEJMc2102124>.
64. Georjin-Lavialle S, Terrier B, Guedon AF, Heiblig M, Comont T, Lazaro E, et al. Further characterization of clinical and laboratory features in VEXAS syndrome: large-scale analysis of a multicentre case series of 116 French patients. *Br J Dermatol*. 2022; 186(3):564–74. <https://doi.org/10.1111/bjd.20805>
65. Lacombe V, Prevost M, Bouvier A, Thepot S, Chabrun F, Kosmider O, et al. Vacuoles in neutrophil precursors in VEXAS syndrome: diagnostic performances and threshold. *Br J Haematol*, 2021;195:276–292. <https://doi.org/10.1111/bjh.17679>.
66. Obiorah IE, Patel BA, Groarke EM, Wang W, Trick M, Ombrello AK, et al. Benign and malignant hematologic manifestations in patients with VEXAS syndrome due to somatic mutations in *UBA1*. *Blood Adv*. 2021 Aug 24; 5(16): 3203–3215. <https://doi.org/10.1182/bloodadvances.2021004976>

ANEXO 1

Tabla 1. Resultados de los casos descritos de Síndrome VEXAS.

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Al-Hakim A, 2022 <sup>7</sup>	V 64	Edema periorbitario	No		
Al-Hakim A, 2022 <sup>7</sup>	V 59	CA	ND	SMD PR	Fiebre Dermatológicas Hematológicas
Barba T, 2021, Francia <sup>5</sup>	F 51	HNS progresiva CA	Si HNS		
Beaumesnil S, 2022 <sup>4</sup>	V60	CA unilateral	No	ND	Osteoarticular Dermatológicas
Beaumesnil S, 2022 <sup>4</sup>	V60	CA Odinofagia CLT	Si	ND	Fiebre Osteoarticulares
Beaumesnil S, 2022 <sup>4</sup>	V80	Disfonía CLT	Si	ND	Fiebre Dermatológicas Hematológicas
Beecher MB., 2022 <sup>8</sup>	V 68	Dacrioadenitis recurrente. Inflamación de la glándula submandibular Edema periorbitario Angioedema facial. Dolor intermitente mandibular y en la región del cuello.	Si	Enfermedad relacionada con IgG4 SMD	Oculares Dermatológicas Pulmonares Hematológicas TVP Pancreatitis Esplenomegalia Fiebre Dolor hemifacial izquierdo
Bert-Marcaz C, 2022 <sup>9</sup>	V 74	CA bilateral Laringitis Obstrucción nasal	No	SMD	Pérdida de peso Neurológica Pulmonar
Campochiaro C, 2022 <sup>10</sup>	V 69	CSE Aftas	Si (condritis)	ND	Fiebre Dermatológicas Pulmonares Osteoarticulares
Campochiaro C, 2022 <sup>10</sup>	V 68	CSE Pseudotumor orbitario	Si (condritis)	PR	Fiebre Dermatológicas Osteoarticulares Pulmonares Oculares
Ciferska H, 2022 <sup>2</sup>	V 76	CA CN	No	Artritis reumatoide seronegativa Uveítis PR	Osteoarticular Rash cutáneo Ocular Hematológicas Pérdida de peso

(continúa)

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Tabla 1. Resultados de los casos descritos de Síndrome VEXAS. (continuación)

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Ciferska H, 2022 <sup>2</sup>	V 74	CSE	No	Dermatosis neutrofílica SMD	Rash cutáneo Hematológicas Pulmonares
Ciferska H, 2022 <sup>2</sup>	V 68	CSE	No	Síndrome paraneoplásico (seminoma)	Fiebre Rash cutáneo Hematológicas Ocular
Ciprian G, 2022 <sup>11</sup>	V 56	CA CN Edema periorbitario	ND	Artritis PR Síndrome inflamatorio orbitario	Osteoarticulares Hematológicas Infartos esplénicos Oculares
Dehgan N, 2021 <sup>12</sup>	V 55	CA	Si (CA)	PR	Cutáneo Hematológico
Diarra A, 2022 <sup>6</sup>	V 63	CSE	Si	Síndrome de Sweet SMD	Fiebre Osteoarticular Muscular Dermatológicas Hematológicas Ocular
Diarra A, 2022 <sup>6</sup>	V 48	CSE Poliadenopatía	ND	Síndrome de Sweet	TVP Fiebre Dermatológicas Hematológicas Pulmonares
Diarra A, 2022 <sup>6</sup>	V 56	CSE Aftas orales y genitales	Si (condritis y aftas orales y genitales)	Displasia multilínea Vasculitis de grandes vasos	Hematológicas Vasculitis
Diarra A, 2022 <sup>6</sup>	V 50	CSE Sinusitis	Si	SMD	Vasculitis Genitales (Orquitis) Osteoarticulares Hematológicas
Escoda T, 2022 <sup>13</sup>	V 69	CA&	Si	PR SMD	Fiebre recurrente Pérdida de peso Dermatológicas Genitales (Orquitis) Oculares Neurológicas Eventos tromboembólicos
Euvrard R, 2021 <sup>14</sup>	V 59	CA	Si	PR	Hematológicas Amiloidosis sistémica

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Goyal A, 2022 <sup>15</sup>	V 64	Parotiditis CA Edema periorbitario	No	Síndrome de Sweet	Hematológicas Tos crónica Pulmonares Fiebre Genitales (dolor testicular) Oculares Osteoarticulares Dermatológicas
Grey A, 2021 <sup>16</sup>	V 74	CA Disfonía	Si (CA y disfonía)	PR	Hematológicas
Grosse A, 2022 <sup>17</sup>	V 69	CA	Si	Síndrome de Sweet	Fiebre Pérdida de peso Diaforesis Dermatológicas Hematológicas TVP y TEP Pulmonares
Guerrero-Bermúdez CA, 2022 <sup>18</sup>	V 72	CLT CA& Edema severo de la laringe supraglótica	Si	Poliarteritis nodosa PR SMD	Fiebre Pérdida de peso Osteoarticulares Dermatológicas Hematológicas Vasculitis Oculares
Gunnarsson K, 2022 <sup>19</sup>	V 72	CA	No	ND	Síntomas B Tromboflebitis Dermatitis Ocular Epididimitis Fiebre Pulmonar Hematológicas
Holmes A., 2022 <sup>20</sup>	V 70	CSE Edema periorbitario	Si	SMD Pseudotumor inflamatorio	Ocular Hematológicas TVP Fiebre Osteoarticular Dermatológicas Neurológicas Neuralgia del trigémino
Islam S, 2022 <sup>21</sup>	V 67	CA& CN	No	PR SMD	Fiebre Dermatológicas Oculares Cardiacas(pericarditis) Pulmonares

*(continúa)*

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Tabla 1. Resultados de los casos descritos de Síndrome VEXAS. (continuación)

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Islam S, 2022 <sup>21</sup>	V 69	Parotiditis Laringitis Edema periorbitario	Si (parotiditis y laringitis)	ND	Fiebre Pérdida de peso Sudores nocturnos Dermatológicas Osteoarticulares Oculares TVP
Islam S, 2022 <sup>21</sup>	V 67	Inflamación sino-orbitaria & CA		Polimialgia reumática	Fiebre Dermatológicas Osteoarticulares Oculares Pulmonares Vasculitis Hematológicas
Koster M, 2021 <sup>22</sup>	V57	CA CN			
Koster M, 2021 <sup>22</sup>	V72	CA CN			
Koster M, 2021 <sup>22</sup>	V75	CA CN			
Koster M, 2021 <sup>22</sup>	V66	CA CN			
Koster M, 2021 <sup>22</sup>	V64	CA CN			
Lee SMS, 2021 <sup>3</sup>	V69	Adenopatías cervicales CA Absceso amigdalino	Si (adenopatías cervicales)	Kikuchi Fujimoto (inicialmente) PR (tras la aparición de CA)	Fiebre Hematología Cutáneas TVP
Lacombe V, 2021 <sup>23</sup>	V66	CA CN	No	Síndrome de Sweet	Dermatológicas Osteoarticulares Hematológicas
Legeas C, 2022 <sup>24</sup>	V 70	CA Queilitis	Si	Lupus profundo (diagnóstico diferencial con eritema anular concomitante con tiroiditis autoinmune) Síndrome de sweet	Dermatológicas Fiebre
Lucchino B, 2022 <sup>25</sup>	V 75	Adenopatías cervicales CA HNS Aftas orales	No	PR Síndrome de Bechet atípico	Fiebre Pérdida de peso Dermatológicas Hematológicas Pulmonares Osteoarticulares Oculares

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Magnol M, 2021 <sup>26</sup>	V57	CA CN Nariz en silla de montar	No		Piel Osteoarticular Uveitis G-I
Mangaonkar AA, 2022 <sup>27</sup>	V 63	CSE	ND	ND	Hematológicas Resto ND
Mangaonkar AA, 2022 <sup>27</sup>	V 49	CSE	ND	ND	Hematológicas Resto ND
Manzoni M, 2022 <sup>28</sup>	V 77	CA CN	No	SMD	Hematológicas Oculares Dermatológicas
Martin-Nares E, 2022 <sup>29</sup>	V 77	CA Inflamación periorbitaria recurrente HNS	No	Enfermedad de Graves SMD	Dermatológicas Trombosis de las venas basílicas Hematológicas Fiebre Ocular Pulmonares
Matsuki Y, 2022 <sup>30</sup>	V 62	CA	Si	Síndrome de Schnitzler Vasculitis leucocitoclástica	Dermatológicas Fiebre Muscular
Matsumoto H, 2022 <sup>31</sup>	V 60	Aftas orales y genitales	Si	Enfermedad de Beçhet SMD	Dermatológicas Fiebre Hematológicas Pulmonares Oculares
Matsumoto H, 2022 <sup>31</sup>	V 83	CA&	No	Mieloma múltiple	Hematológicas
Midtvedt Ø, 2022 <sup>32</sup>	V 60	Dolor transitorio en la articulación temporomandibular al masticar CA,CN Otitis media	No	Arteritis extracraneal de células gigantes PR	Dolor torácico Oculares Pulmomanres Vasculitis Hematológicas
Mohammed TO, 2022 <sup>33</sup>	V 61	CSE	ND	Síndrome de Sweet Anemia macrocítica Enfermedad indiferenciada del tejido conectivo Síndrome de Sjoren PR	Dermatológicas Hematológicas

(continúa)

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Tabla 1. Resultados de los casos descritos de Síndrome VEXAS. (continuación)

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Muratore F, 2022 <sup>34</sup>	V 64	CN CA Edema periorbitario Edema de cuello	Si (CA, CN)	PR SMD	Fiebre Dermatológicas Pulmonares Hematológicas TVP Osteoarticulares Edema periorbitario
Neupane K, 2022 <sup>35</sup>	V 60	CA bilateral	No	SMD PR	Oculares Hematológicas
Nguyen JK, 2022 <sup>36</sup>	V 63	Aftas orales	Si (aftas orales)	Enfermedad de Beçhet Síndrome de Sweet SMD	Dermatológicas Osteoarticulares Oculares Hematológicas Fiebre
Pathmanathan K, 2022 <sup>37</sup>	V 71	CN CA &	No	PR	Dermatológicas Sudores nocturnos Ocular Hematológicas
Pámies A, 2022 <sup>38</sup>	V 76	CA		PR SMD	Ocular Hematológica
Perlot Q, 2022 <sup>39</sup>	V 76	No	No	Síndrome de Sweet	
Poulter J, 2022 <sup>40</sup>	V 67	CSE	ND	PR	Fiebre Hematológicas
Poulter J, 2022 <sup>40</sup>	V 73	Edema periorbitario	ND	ND	Fiebre Pulmonares TVP Hematológicas Oculares
Raaijmakers MHGP, 2021 <sup>41</sup>	V61	CA bilateral, CN		PR	
Raaijmakers MHGP, 2021 <sup>41</sup>	V77	CA bilateral Edema periorbitario		PR	
Raaijmakers MHGP, 2021 <sup>41</sup>	V67	CNE	Si	PR	
Rivera EG, 2022 <sup>42</sup>	V 75	CA HNS Disfunción vestibular Odinofagia Edema periorbitaria	Si (CA e HNS)	ND	Mareos Cardiaca (derrame pericárdico) Hematológicas Oculares Fiebre Tos no productiva Digestivas (diarrea) Osteoarticulares Dermatológicas

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Sakuma M, 2021 <sup>43</sup>	V61	CA CN	Si		Pulmón SMD
Staels, 2021 <sup>44</sup>	V69	Adenopatías cervicales bilaterales (infección por el virus del herpes VIII) CN	Si (adenopatías cervicales)	Enfermedad de castleman multicéntrica.	Oculares Cutáneas Osteoarticulares
Stubbins RJ, 2022 <sup>45</sup>	F 67	CA	Si	PR SMD	Hematológicas Osteoarticular
Takahashi N, 2021 <sup>46</sup>	V55	Edema periorbitario	Si		
Temple, 2021 <sup>47</sup>	V71	CA , CN	Si		
Topilow JS, 2022 <sup>48</sup>	V 57	CA unilateral Laringitis	No	ND	Hematológicas Ocular Osteoarticular
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V78	CA CN CLT	ND	PR	Hematológico
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V81	CA CLT	ND	PR	
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V68	CA CLT	ND	PR	
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V71	CA CLT	ND	PR	
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V78	CA	ND	PR	
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V66	CA, CN Audiovestibular	ND	PR	
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V73	CA&	ND	PR	
Tsuchida N, 2021 <sup>49</sup>	V66	CA&	ND	PR	
Uchino K, 2022 <sup>50</sup>	V80	CSE	ND	PR SMD	Hematológicas
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 55	Ulceras nasales relacionadas con vasculitis	No	Vasculitis leucocitoclástica Vasculitis con anticuerpos anticitoplasma de neutrófilo negativos	Fiebre Hematológicas Dermatológicas Pulmonares Vasculitis ACVA
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 69	CA Edema periobitario	Si	Vasculitis leucocitoplástica	Hematológicas Dermatológicas Cardiacas Osteoarticulares Oculares Insuficiencia renal

(continúa)

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Tabla 1. Resultados de los casos descritos de Síndrome VEXAS. (continuación)

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 79	Edema periorbitario e intraorbitario	No	Antecedentes de poliposis nasal Poliarteritis nodosa	Fiebre Pérdida de peso Sudores nocturnos Hematológicas Dermatológicas Pulmonares Genitales (epididimitis) Oculares
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 78	No	No	Arteritis temporal	Fiebre Pérdida de peso Sudores nocturnos Hematológicas Dermatológicas Pulmonares Cardíacas (miocarditis) Polineuropatía axonal Oculares
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 74	CA CN Epistaxis y formación de costras nasales	No	ND	Fiebre Sudores nocturnos Pérdida de peso Hematológicas Dermatológicas Vasculitis Genital (orquitis) Oculares
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 70	Adenopatías cervicales & Edema periorbitario	Si (adenopatías cervicales)	Se sospechó enfermedad de Still del adulto SMD	Fiebre Sudores nocturnos Hematológicas Dermatológicas Pulmonares Osteoarticulares Digestivas (lesiones ulcerativas en colon y ciego)
Van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 66	CA	No	Eritema multiforme exudativo Tiroiditis autoinmune Síndrome de Sweet SMD	Fiebre Hematológicas Dermatológicas Pulmonares Osteoarticulares

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 47	CSE Parotiditis Edema periorbitario	No	Enfermedad relacionada con IgG4 Enfermedad de Still del adulto	Fiebre Pérdida de peso Sudores nocturnos Hematológicas Dermatológicas Pulmonares Meningitis aséptica Oculares Renal (proteinuria y hematuria)
van der Made CI, 2022 <sup>51</sup>	V 56	Adenopatías cervicales CA	No	Vasculitis de grandes vasos PR	Fiebre Sudores nocturnos Cefalea Hematológicas Genitales (epididimitis) Oculares
Van Leeuwen-Kerkhoff N, 2022 <sup>52</sup>	V 47	Sinusitis CSE Parotiditis	Si (sinusitis y condritis)	Enfermedad relacionada con IgG4. Se consideró el diagnóstico de enfermedad de Still de inicio en adultos.	Sinusitis Tos Pérdida de peso Fiebre Dermatológicas Hematológicas Osteoarticulares Pulmonares
Varadarajan A, 2022 <sup>53</sup>	V 69	Edema subglótico. Edema hemifacial derecho.	No	Síndrome autoinflamatorio	Fiebre Tos seca progresiva Pulmonares TVP Pérdida de peso Dermatológicas Neurológicas Hematológicas
Wilke MVMB, 2022 <sup>54</sup>	V 46	HNS bilateral	No	Se sospechó Poliarteritis nodosa o CAPS	Genitales (Priapismo, dolor testicular) Fiebres recurrentes Oculares Dermatológicas Hematológicas
Wilson NR, 2022 <sup>55</sup>	V 66	Perforación del septo nasal Necrosis de la epiglotis CA	No	SMD	Fiebre Hematológicas Dermatológicas Pérdida de peso Fenómeno de Raynaud

(continúa)

MANIFESTACIONES OTORRINOLARINGOLÓGICAS DEL SÍNDROME VEXAS. REVISIÓN SISTEMÁTICA  
MARTÍNEZ-DÍAZ L Y MORALES-ANGULO C

Tabla 1. Resultados de los casos descritos de Síndrome VEXAS. (continuación)

Autor, año, país	Sexo y Edad	Manifestaciones ORL	Manifestación ORL en el inicio	Diagnóstico previo	Otras manifestaciones sistémicas
Yamaguchi H, 2022 <sup>56</sup>	V 78	CA bilateral &	No	PR SMD Síndrome de Sweet Vasculitis de grandes vasos	Fiebre Dermatológicas Osteoarticulares Dermatológicas Cardiológicas Vasculitis (fístula arteriovenosa iliaca con IC).
Yildirim F, 2022 <sup>57</sup>	V 67	Edema periorbitario	No	ND	Fatiga Fiebre recurrente Pulmonares Renales Hematológicas Dermatológicas
Yilmaz U, 2022 <sup>58</sup>	V 81	Adenopatías cervicales &	Si	Enfermedad de Kikuchi-Fujimoto SMD	Fiebre Adenopatías cervicales e inguinales Neuralgia del trigémino Anorexia Pérdida de peso Hematológicas
Zeeck M, 2022 <sup>59</sup>	V76	Artritis de la articulación temporomandibular	No	ND	Fiebre recurrente Osteoarticulares Hematológicas Oculares Pulmonares

(CA: *condritis auricular*, CN: *condritis nasal*, CLT: *condritis laringotraqueal*, CSE: *condritis sin especificar localización*, HNS: *hipoacusia neurosensorial*, PR: *policondritis recidivante*, SMD: *síndrome mielodisplásico*) &: *lugar donde se realiza la biopsia*

## TADALAFILO PODRÍA SER UNA OPCIÓN TERAPÉUTICA EN LA ENFERMEDAD DE MÉNIÈRE

### *Tadalafil could be a therapeutic option in Ménière's disease*

Ricardo D'ALBORA <sup>1</sup>; Jorge BELLO <sup>2</sup>; María Julia MÓNACO <sup>1</sup>

<sup>1</sup> Cátedra de Otorrinolaringología. Hospital de Clínicas Dr. Manuel Quintela. Universidad de la República. Montevideo. Uruguay.

<sup>2</sup> Círculo Católico de Obreros del Uruguay. Montevideo. Uruguay.

Correspondencia: [jobellolar@gmail.com](mailto:jobellolar@gmail.com)

Fecha de recepción: 31 de mayo de 2023

Fecha de aceptación: 29 de septiembre de 2023

Fecha de publicación: 16 de octubre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 18 de diciembre de 2023

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses

Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes

Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO)

Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional

Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

Sr. director:

La remisión total de los síntomas vestibulares en un paciente con enfermedad de Ménière (EM) tratado con tadalafilo por hiperplasia prostática benigna (HPB), aporta opciones para la investigación de nuevas opciones terapéuticas.

La EM es un trastorno crónico y multifactorial que se manifiesta con episodios recurrentes de vértigo, acúfeno, plenitud ótica e hipoacusia neurosensorial fluctuante por un aumento del volumen y la presión de la endolinfa en el órgano

cocleovestibular. La prevalencia es de 34 a 190 casos por 100.000 habitantes y afecta más a personas entre 30 y 70 años. El diagnóstico se basa en criterios clínicos y audiométricos según la Sociedad Bárány. Existen múltiples tratamientos médicos y quirúrgicos, pero sin consenso sobre su eficacia. El tadalafilo es un inhibidor de la fosfodiesterasa 5 (IPDE5), una enzima que metaboliza el GMPC-GMP y el AMPC-AMP, segundos mensajeros intracelulares. Las PDE están ampliamente distribuidas en el cerebro y regulan la neurogénesis, el crecimiento sináptico, la plasticidad neuronal y otras funciones



- Cialis 2.5mg, 5mg, 10mg & 20mg film-coated tablets. Undesirable - Effects - Pharmacological - Properties - Interactions - Posology Contraindications - Excipients. Last updated on emc: 30 Jan 2023. URL: <https://www.medicines.org.uk/emc/medicine/11363>.
- Duarte-Silva E, Filho AJMC, Barichello T, Quevedo J, Macedo D, Peixoto C. Phosphodiesterase-5 inhibitors: Shedding new light on the darkness of depression? *J Affect Disord.* 2020 Mar 1;264:138-149. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2019.11.114>. Epub 2019 Nov 30. PMID: 32056743.
- Lopez-Escamez JA, Carey J, Chung WH, Goebel JA, Magnusson M, Mandalà M, Newman-Toker DE, Strupp M, Suzuki M, Trabalzini F, Bisdorff A; Classification Committee of the Barany Society; Japan Society for Equilibrium Research; European Academy of Otolology and Neurotology (EAONO); Equilibrium Committee of the American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery (AAO-HNS); Korean Balance Society. Diagnostic criteria for Menière's disease. *J Vestib Res.* 2015;25(1):1-7. <https://doi.org/10.3233/VES-150549>. PMID: 25882471.
- Pérez-Garrigues H, Pérez Carbonell T, y Pérez Guillén V. El vértigo en la Enfermedad de Ménière. Manejo del Síndrome Vestibular Agudo. Ed Akadia. 1ª Ed. 2017. BsAs R.A.Cap.10. Pg 97-103.

