

ORL

Volumen 15 • Número 2 • 2024

OTORRINOLARINGOLOGÍA
DOCUMENTACIÓN Y METODOLOGÍA DE INVESTIGACIÓN



eISSN: 2444-7986
DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.2024152>
<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 ORIGINAL

Exenteración ocular en la mucormicosis rino-órbita-cerebral
Juan Antonio LUGO-MACHADO; Martha Lucia GUTIÉRREZ-PÉREZ; Araceli ZAZUETA-CÁRDENAS;
Yaima HERNÁNDEZ-SÁNCHEZ; Elizabeth MEDINA-VALENTÓN; Patricia Emiliana GARCÍA-RAMÍREZ 71

Efectividad real de la terapia biológica en el tratamiento de pacientes con rinosinusitis crónica
con poliposis nasosinusal
Cristina GARCÍA-GARCÍA; Ithzel VILLARREAL-PATIÑO; Adriana PARDO-MAZA;
Gabriela BOSCO-MORALES; Estefanía MIRANDA-SÁNCHEZ; Guillermo PLAZA-MAYOR 81

ARTÍCULOS DE REVISIÓN

Abordajes quirúrgicos del espacio parafaríngeo. Comparación de abordajes externos y endoscópicos.
Revisión sistemática
Juan LOSADA-CAMPA; Luis Miguel TORRES-MORIENTES; Juan Francisco PASTOR-VÁZQUEZ;
Eduardo TAMAYO-GÓMEZ; Marta MARTÍN-FERNÁNDEZ; Jaime SANTOS-PÉREZ 93

Enfisema parafaríngeo tras fractura de la porción timpánica del hueso temporal. Revisión sistemática
Rocío GARCÍA-FERNÁNDEZ; Ana María GASÓS-LAFUENTE; María GUALLAR-LARPA;
María José LAVILLA-MARTÍN DE VALMASEDA 105

Epidemiología del vértigo infantil. Revisión bibliográfica y metanálisis
Chiara MONOPOLI-ROCA; Guillermo CORONEL-TOUMA; Cristina Nicole ALMEIDA-AYERVE;
Susana MARCOS-ALONSO; Ángel BATUECAS-CALETRÍO; José Luis PARDAL-REFOYO 111

Causas de vértigo periférico en la infancia
Enrique COSCARÓN-BLANCO; Pablo SANTOS-GORJÓN; María-Cruz PÉREZ-LIEDO;
Mar DE PRADO-SAN JOSÉ; María MARTÍN-BAILÓN; Michael BAUER;
María-Soledad SUÁREZ-ORTEGA; Miriam GONZÁLEZ-SÁNCHEZ 125

Causas centrales estructurales de vértigo en la infancia
Cristina CORDERO-CIVANTOS; Laura ÁLVAREZ-GÓMEZ; Irene GÓMEZ-GREGORIS;
Cristina MARTÍNEZ-AUSIN; Jorge BEDIA-GARCÍA; María Isabel CALLE-CABANILLAS;
Judith PÉREZ-SÁEZ; Arturo RIVAS-SALAS; Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA 149

CASO CLÍNICO

Dos tipos de neoformaciones del espacio parafaríngeo, dos ejemplos de abordajes (externo y endoscópico)
Juan LOSADA-CAMPA; Luis Miguel TORRES-MORIENTES; Juan Francisco PASTOR-VÁZQUEZ;
Eduardo TAMAYO-GÓMEZ; Marta ALONSO-MESONERO; Jaime SANTOS-PÉREZ 155

Enfisema parafaríngeo tras fractura de la porción timpánica del hueso temporal. Descripción de un caso
Rocío GARCÍA-FERNÁNDEZ; Ana María GASÓS-LAFUENTE; María GUALLAR-LARPA;
María José LAVILLA-MARTÍN DE VALMASEDA 165

TABLE OF CONTENTS**ORIGINAL ARTICLE**

Ocular exenteration in rhino-orbito-cerebral mucormycosis
 Juan Antonio LUGO-MACHADO; Martha Lucia GUTIÉRREZ-PÉREZ; Araceli ZAZUETA-CÁRDENAS;
 Yaima HERNÁNDEZ-SÁNCHEZ; Elizabeth MEDINA-VALENTÓN; Patricia Emiliana GARCÍA-RAMÍREZ 71

Real life effectiveness of biologics in the treatment of patients with chronic rhinosinusitis with nasosinusual polyposis
 Cristina GARCÍA-GARCÍA; Ithzel VILLARREAL-PATIÑO; Adriana PARDO-MAZA;
 Gabriela BOSCO-MORALES; Estefanía MIRANDA-SÁNCHEZ; Guillermo PLAZA-MAYOR 81

REVIEW

Surgical approaches to the parapharyngeal space. A comparison of external and endoscopic approaches. Systematic review
 Juan LOSADA-CAMPA; Luis Miguel TORRES-MORIENTES; Juan Francisco PASTOR-VÁZQUEZ;
 Eduardo TAMAYO-GÓMEZ; Marta MARTÍN-FERNÁNDEZ; Jaime SANTOS-PÉREZ 93

Parapharyngeal emphysema after fracture of the tympanic portion of the temporal bone. A systematic review
 Rocío GARCÍA-FERNÁNDEZ; Ana María GASÓS-LAFUENTE; María GUALLAR-LARPA;
 María José LAVILLA-MARTÍN DE VALMASEDA 105

Epidemiology of childhood vertigo. Bibliographic review and meta-analysis
 Chiara MONOPOLI-ROCA; Guillermo CORONEL-TOUMA; Cristina Nicole ALMEIDA-AYERVE;
 Susana MARCOS-ALONSO; Ángel BATUECAS-CALETRÍO; José Luis PARDAL-REFOYO 111

Causes of peripheral vertigo in childhood
 Enrique CÓSCARÓN-BLANCO; Pablo SANTOS-GORJÓN; María-Cruz PÉREZ-LIEDO;
 Mar DE PRADO-SAN JOSÉ; María MARTÍN-BAILÓN; Michael BAUER;
 María-Soledad SUÁREZ-ORTEGA; Miriam GONZÁLEZ-SÁNCHEZ 125

Structural central causes of vertigo in childhood
 Cristina CORDERO-CIVANTOS; Laura ÁLVAREZ-GÓMEZ; Irene GÓMEZ-GREGORIS;
 Cristina MARTÍNEZ-AUSIN; Jorge BEDIA-GARCÍA; María Isabel CALLE-CABANILLAS;
 Judit PÉREZ-SÁEZ; Arturo RIVAS-SALAS; Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA 149

CLINICAL CASE

Two types of parapharyngeal neoformations, two examples of approaches (external and endoscopic)
 Juan LOSADA-CAMPA; Luis Miguel TORRES-MORIENTES; Juan Francisco PASTOR-VÁZQUEZ;
 Eduardo TAMAYO-GÓMEZ; Marta ALONSO-MESONERO; Jaime SANTOS-PÉREZ 155

Parapharyngeal emphysema after fracture of the tympanic portion of the temporal bone. A case report
 Rocío GARCÍA-FERNÁNDEZ; Ana María GASÓS-LAFUENTE; María GUALLAR-LARPA;
 María José LAVILLA-MARTÍN DE VALMASEDA 165

EXENTERACIÓN OCULAR EN LA MUCORMICOSIS RINO-ÓRBITO-CEREBRAL

Ocular exenteration in rhino-orbito-cerebral mucormycosis

Juan Antonio LUGO-MACHADO¹; Martha Lucia GUTIÉRREZ-PÉREZ³;
Araceli ZAZUETA-CÁRDENAS¹; Yaima HERNÁNDEZ-SÁNCHEZ²;
Elizabeth MEDINA-VALENTÓN¹; Patricia Emiliana GARCÍA-RAMÍREZ¹

¹*Instituto Mexicano del Seguro Social, Cd Obregón Sonora, México.*

²*Secretaría de salubridad y asistencia Cd Obregón Sonora, México.*

³*Universidad El Bosque, Bogotá, Colombia.*

Correspondencia: otorrinox@gmail.com

Fecha de recepción: 7 de febrero de 2024

Fecha de aceptación: 27 de abril de 2024

Fecha de publicación: 28 de febrero de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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 mucormicosis es una infección generada por hongos aerobios muy agresiva que puede involucrar vía aérea superior y extenderse a estructuras adyacentes. objetivo: Analizar la asociación entre el deceso y la exenteración ocular en pacientes con mucormicosis rino-orbito-cerebral. Método: Se analizaron los aspectos clínicos y desenlace de los pacientes con mucormicosis rino-orbito-cerebral. Se empleó estadística descriptiva, se empleó Ji cuadrado para asociación, para riesgo se utilizó odd ratio, considerando como significativo con un valor de $p \leq 0.05$. Resultados: De 45, 11 no cumplieron los criterios de inclusión, no se encontraron asociaciones entre sexo, diabetes con otras comorbilidades, los estadios de la MROC y deceso, la infección por COVID-19, ni la hemoglobina glucosilada (HbA1c). Sin embargo, la lisis ósea en la tomografía ($p=0.001$), el tipo de procedimiento quirúrgico ($p=0.002$), y la exenteración ocular ($p=0.001$) se asociaron significativamente con deceso. Se encontraron diferencias entre los niveles de proteína C reactiva (PCR) ($p=0.035$), la velocidad de sedimentación globular (VSG) ($p=0.056$), y el recuento absoluto de neutrófilos ($p=0.000$) con muerte. Discusión: La decisión de exenteración ocular,

es un aspecto complejo en los pacientes con MROC, existen autores quienes señalan que el impacto psicológico es significativo en una proporción sustancial de pacientes. Conclusiones: Las únicas características asociadas a deceso en pacientes con MROC en el estudio fueron la presencia de lisis ósea en la tomografía y la exenteración ocular.

PALABRAS CLAVE: Mucormicosis; infecciones por coronavirus; virus del SRAS; diabetes mellitus; infecciones oculares; hongos.

SUMMARY: Introduction: Mucormycosis is a very aggressive infection generated by aerobic fungi that can involve the upper airway and spread to adjacent structures. Objective: To analyze the association between death and ocular exenteration in patients with rhino-orbito-cerebral mucormycosis. Method: The clinical aspects and outcome of patients with rhino-orbito-cerebral mucormycosis were analyzed. Descriptive statistics were used, Chi square was used for association, odd ratio was used for risk, considering a value of $p \leq 0.05$ as significant. Results: Of 45, 11 did not meet the inclusion criteria, no associations were found between sex, diabetes with other comorbidities, MROC stages and death, COVID-19 infection, or glycated hemoglobin (HbA1c). However, bone lysis on tomography ($p=0.001$), type of surgical procedure ($p=0.002$), and ocular exenteration ($p=0.001$) were significantly associated with death. Differences were found between C-reactive protein (CRP) levels ($p=0.035$), erythrocyte sedimentation rate (ESR) ($p=0.056$), and absolute neutrophil count ($p=0.000$) with death. Discussion: The decision to undergo ocular exenteration is a complex aspect in patients with MROC. There are authors who point out that the psychological impact is significant in a substantial proportion of patients. Conclusions: The only characteristics associated with death in patients with MROC in the study were the presence of bone lysis on the tomography and ocular exenteration.

KEYWORDS: Mucormycosis; coronavirus infections; SARS virus; mellitus diabetes; eye infections; fungal.

INTRODUCCIÓN

La mucormicosis consiste en una infección causada por hongos aerobios saprofitos del orden de los mucorales [1], la cual se clasifica según el sitio anatómico afectado, por ejemplo, mucormicosis rino-órbito-cerebral (MROC), pulmonar, gastrointestinal, cutánea, renal, diseminada, entre otras; siendo las MROC la más frecuente frente a los otros tipos [1,2].

Dentro de las principales especies aisladas se encuentran *Rhizopus oryzae*, *Mucor circinelloides* y *Lichtheimia corymbifera*, debido que se encuentran en el aire y su vía de entrada es de manera inhalada [3]. Adicionalmente, estos microorganismos se encuentran en la tierra, vegetales en descomposición, frutas y pan de trigo [4].

A grandes rasgos, estos hongos se alojan en mucosa nasal, senos paranasales o tejido pulmonar e incluso, ya sea por vía hematogena o por

diseminación directa, pueden llegar al cerebro [1]. Partiendo de este hecho, los hongos llegan a invadir los vasos sanguíneos y ocasionan una respuesta inflamatoria local que termina generando trombosis, infartos y necrosis del tejido del huésped [1].

Es importante tener en cuenta que esta entidad rara vez se produce en individuos inmunocompetentes, predomina en pacientes inmunocomprometidos y aquellos con diabetes en descompensación metabólica [2].

La literatura no proporciona una base de información amplia para decidir la indicación de exenteración ocular en la práctica diaria en pacientes con mucormicosis rino-órbito cerebral (MROC). Además, con el aumento repentino y exponencial en el número de mucormicosis post coronavirus 2019 (COVID-19), la toma de decisiones con respecto al procedimiento de exenteración ha sido desafiante ya que causa una desfiguración que representa una amenaza psicológica para el paciente [5].

Piomchai et al. observaron que más del 70% de las muertes ocurrieron dentro del subgrupo de pacientes que presentaron síntomas de la enfermedad dentro de los 14 días previos al ingreso [6]. Es por esto que el manejo de MROC requiere un enfoque multimodal, multidisciplinario e individualizado urgente que incluya la combinación de un tratamiento antimicótico sistémico apropiado, desbridamiento quirúrgico de tejidos necróticos y corrección de afecciones subyacentes como hiperglucemia y acidosis, etcétera [6].

Singh et al. sugirieron que la exenteración orbitaria se debe individualizar en función de la afectación de la arteria retiniana, la agresividad de la enfermedad, las enfermedades debilitantes subyacentes, la respuesta a la quimioterapia antimicótica y el estado visual [7].

Levinsen et al. recomendaron una exenteración orbitaria agresiva ante un caso de MROC con síndrome del ápex orbitario, necrosis peribulbar o facial con o sin afectación de nervios craneales [8]. Vironneau et al. señala que, aunque se recomienda un manejo focal agresivo como base para controlar, solo el 5% que requiere exenteración orbitaria [9].

Existen múltiples formas de abordar el procedimiento, incluida la exenteración con preservación del párpado, la enucleación extendida y la exenteración orbitaria endoscópica [10]. Algunas investigaciones han propuesto la inyección retrobulbar en algunos casos de mucormicosis con manejo en el involucro orbitario [11-14].

Sharifi et al., realizaron una revisión sistemática de la literatura en el 2022, en 647 casos, concluyendo que la inyección retrobulbar de anfotericina B debe considerarse una intervención prácticamente segura y protectora contra la exenteración orbitaria en pacientes con mucormicosis con involucro orbitario [15].

Las pautas estándar para la exenteración orbitaria en el tratamiento de MROC no se encuentran disponibles en la literatura [16,17].

Diversos organismos científicos han propuesto varias pautas para ayudar en la toma de decisiones

para realizar la exenteración. El autor Santosh G Honavar, propuso un algoritmo de manejo para MROC en el contexto de COVID-19. Según el mismo, se recomienda la exenteración orbitaria para la afectación orbitaria extensa (oclusión de la arteria central de la retina o la arteria oftálmica, trombosis de la vena oftálmica superior, afectación del ápex orbitario, pérdida de visión y afectación bilateral), afectación limitada del sistema nervioso central (SNC) (afectación focal o difusa del seno cavernoso o trombosis) y en caso de afectación extensa del SNC (afectación más allá del seno cavernoso, afectación de la base del cráneo, infarto cerebral o afectación difusa del SNC) si el estado sistémico general del paciente permite la cirugía [18].

Para el estudio realizado, todos los pacientes con compromiso orbitario extenso con o sin compromiso mínimo del SNC fueron elegibles para exenteración

MATERIAL Y MÉTODO

Se diseñó un estudio retrospectivo y transversal en el hospital, con el objetivo de analizar los aspectos clínicos y desenlace de los pacientes con mucormicosis rino-orbita-cerebral en una serie de casos tratados y registrados en el centro hospitalario, dado el incremento en este último año en asociación a COVID-19, se consideró también este dato. Fueron incluidas las variables como el antecedente de infección por COVID-19 y sin antecedentes de infección, los hallazgos clínicos, de laboratorio, radiológicos y de mortalidad, así como la edad, el sexo, exenteración y no del ojo, se estadificó a la MROC según la clasificación de Talmí 2002 [19]. El límite de tiempo de tres meses se tomó según la definición ampliamente aceptada de síndrome post-agudo de COVID-19 [20].

Se elaboró en una hoja de Excel para Windows, donde se recolectaron y codificaron las variables de interés, se excluyeron los casos con expedientes incompletos y aquellos que no contaban con informe histopatológico o que resultaron ser una

infección micótica diferentes a mucormicosis, así mismo como los casos que decidieron no recibir tratamiento quirúrgico o que su seguimiento fue en otro hospital. Los detalles de la presentación reciente y la gravedad de COVID-19 se recuperaron de los documentos disponibles con los pacientes.

El diagnóstico de COVID-19 se basó en una reacción en cadena de la polimerasa con transcriptasa inversa (PCR-TR) positiva documentada o en una prueba rápida de antígeno de un hisopo naso-orofaríngeo. Los pacientes recuperados de la infección por COVID-19 tres meses antes y actualmente con PCR-TR negativo para coronavirus de tipo 2 causante del síndrome respiratorio agudo severo SARS-CoV-2 se consideraron como COVID-19 reciente.

Con la finalidad de evaluar riesgo, con odd ratio, se consideró como caso a los pacientes fallecidos y controles a los pacientes vivos, así como casos a los pacientes exenterados y control a los no exenterados del ojo durante el periodo de tiempo de enero de 2020 a octubre de 2022.

ANÁLISIS DE DATOS

Se realizó categorización de las variables cuantitativas a cualitativas de manera dicotómica o politómica, a fin de facilitar el análisis estadístico bivariado. Respecto a los laboratorios, se consideraron como punto de corte los niveles de proteína C reactiva (PCR) ≥ 30 mg/dL, y ≤ 29 mg/dL, la velocidad de sedimentación globular (VSG) ≤ 100 mm/h y ≥ 110 mm/h. En relación con el recuento de neutrófilos fueron considerados como punto de corte la cantidad de ≥ 1800 /mm³ y < 1800 /mm³ y la hemoglobina glucosilada (HbA1c) $\leq 6\%$, y $\geq 7\%$.

Una vez capturadas las variables a través de una hoja de cálculo de Excel de Microsoft Office 2019 para Windows, se empleó estadística descriptiva con medidas de tendencias central y de dispersión, para el análisis inferencial se empleó Chi cuadrado de Pearson o prueba exacta de Fisher para asociación en variables categóricas, para analizar el riesgo de exenteración ocular, se utilizó razón de momios

u odd ratio, fue considerado como significativo con un valor de $p \leq 0.05$ con un intervalo de confianza (IC) del 95 %, se empleó la paquetería IBM SPSS versión 26 para Windows, se usaron gráficas y cuadros para su ilustración.

RESULTADOS

Los resultados se recogen en la Tabla 1 (Anexo 1). De un total de 45 casos registrados en el periodo de estudio se eliminaron a 11 por no cumplir los criterios de inclusión como expedientes incompletos, seguimiento en otro hospital, desconociendo del desenlace, por lo que consideramos a 34 casos para el análisis, 15/34 casos con MROC en era COVID-19 y 19/34 casos MROC era pre-COVID-19, en general el promedio de edad fue de 60.87 DS \pm 11.8 años, por grupos de edad se presentaron 19 (55,9%) ≥ 60 años y 15 (44,1%) ≤ 59 años, el sexo femenino fueron 16 (47.1%), masculino con 18 (52.9%). Dentro de las comorbilidades 55,9% solo eran diabéticos, y 44,1% tenían diabetes y otras comorbilidades. 23 (67,7%) se estadificaron como rino-orbital 8/ 34, 23/34(67,6%) orbito-cerebral 8/34(23,5%) y sinusal 3/34(8,8%). En 24 (70,6%) se realizó debridación de nariz y senos paranasales solo por vía endoscópica y en 10 (29,4%) el abordaje fue combinado por vía endoscópica y abierta en conjunto con maxilofacial.

En los hallazgos tomográficos la mitad de los casos estudiados presentaba lisis ósea. En 11 (32,4%) se realizó exenteración ocular, mientras que en 23 (67,6%) no. El desenlace del estudio de casos fue: vivieron 23 (67,6%) y fallecidos 11 (32,4%). Respecto a los laboratorios, se encontró que 19 (55,9%) presentaron niveles de PCR ≥ 30 mg/dL, mientras que 15 (44,1%) ≤ 29 mg/dL, en 23 (67,7%) presentaron VSG ≤ 100 mm/h, en tanto que 11 (32,4%) ≥ 110 mm/h. En relación a el recuento dentro de los casos se encontró que 11 (32,4%) presentó < 1800 /mm³ y 23 (67,6%) ≥ 1800 /mm³.

En la HbA1c 19 (55,9%) $\leq 6\%$, y 15 (44,1%) $\geq 7\%$. Al realizar análisis inferencial para evaluar

asociación de variables con deceso, se encontró que entre sexo no hubo asociación significativa $p=0.10$, ni de diabetes con otras comorbilidades $p=0.914$, ni entre los estadios de la MROC y deceso con valor $p=0.451$, ni la presencia de infección por COVID-19 presentó asociación $p=0.171$, tampoco la HbA1c con $p=0.914$.

No obstante, la presencia de lisis ósea en la tomografía si se asoció significativamente con deceso valor de $p=0.001$ y entre el tipo de procedimiento quirúrgico y deceso si presentó significancia estadística con un valor de $p=0.002$, la exenteración ocular si se asoció a deceso con un valor de $p=0.001$, los niveles de PCR si presentó diferencias significativas con un valor de $p=0.035$, VSG presentó un valor de $p=0.056$, en el recuento absoluto de neutrófilos si presentó diferencia significativa con $p=0.000$.

No se encontró relación entre deceso y las variables sexo, diabetes con comorbilidades, estadio de MROC, infección por COVID-19 ni HbA1c. Sí hubo asociación significativa entre deceso y las variables lisis ósea en tomografía, la exenteración orbitaria, PCR, VSG y recuento absoluto de neutrófilos

DISCUSIÓN

En una revisión sistemática realizada por Bhattacharyya et al., se menciona que la mucormicosis rino-orbital-cerebral MROC es la forma más común y se encuentra asociada frecuentemente a diabetes como riesgos, seguida de otras afecciones inmunosupresoras. [21]. En el presente estudio se evidenció que en pacientes con MROC y COVID-19, la manifestación rino-orbital, representa la presentación clínica más común, como en los casos evaluados por los autores Bhattacharyya et al. [21], similar a lo señalado por Watanabe et al. [22].

En la serie de Watanabe et al., la exenteración orbitaria fue del 17% [22] y en la de Bhattacharyya et al. 21,2% [22], mayor a lo encontrado por la serie de este estudio, sin embargo, las cifras fueron más

próximas a lo encontrado por Bhattacharyya et al. [21], 21,2%.

La exenteración ocular sigue sin estar clara. Para Hargrove et al. la decisión se encuentra a juicio clínico del médico y proporciona un fuerte apoyo médico legal de que el juicio de éste eclipsa los datos publicados. [23].

Turner et al., señalan que debe hacerse todo lo posible para preservar el ojo porque es controvertido que la exenteración orbitaria reduzca la mortalidad [24]. Por ello, creemos necesario replantear si es prudente agregar un procedimiento adicional como lo es la exenteración ocular completa.

La mortalidad en esta serie de casos fue cercana a lo reportado por Bhattacharyya et al. con 37,3%. Dentro de los factores de riesgo para mucormicosis Ricardo Rabagliati asocia una $HbA1c \geq 8\%$, en el estudio se encontró esta elevación en poco menos de la mitad de los casos con (44%). Sharma et al. [25] encontraron que el 100% de sus casos, presentaron descontrol de la diabetes, y los autores Mishra et al. [26] encontraron algo similar.

Según Watanabe et al. en su metaanálisis, los pacientes que desarrollaron MROC y COVID-19, pueden presentar peores resultados que los pacientes con sin COVID 19, pero sigue sin estar clara la relación [22].

En los estudios suele buscarse la relación entre factores de riesgo con la supervivencia o la mortalidad, más que con la exenteración orbitaria [27]. Es probable que el mayor porcentaje de exenteraciones en el grupo de fallecidos se deba a una mayor gravedad y extensión de la enfermedad.

La exenteración tiene un impacto cosmético, funcional y psicológico significativo. AcKuaKu - Dogbe et al. realizaron un estudio sobre diez sujetos después de la exenteración y encontraron que el 50-60% de los pacientes se sentían muy incómodos con el efecto cosmético de la cirugía, sufrieron comentarios no deseados y mirada desagradable de amigos cercanos y parientes que los hacía sentir incómodos en su compañía [28] [29]. pero representa un factor transcendental en la toma de

decisión Por otro lado, el retraso en la búsqueda de asistencia médica y en el diagnóstico de la enfermedad, así como a la dificultad para controlar la fase avanzada de la infección, la tasa de mortalidad relacionada con la mucormicosis y COVID 19 es bastante alta. Debido retraso en la búsqueda de asistencia médica y en el diagnóstico de la enfermedad, así como a la dificultad para controlar la fase avanzada de la infección, la tasa

de mortalidad relacionada con la mucormicosis y COVID 19 es bastante alta [30].

Un perfil de riesgo común identificado para la mucormicosis incluye diabetes no controlada y tratamiento con esteroides [22]. Es posible que hayan influido la desregulación inmunitaria inducida por la COVID-19, así como algunos factores de riesgo únicos y específicos de la pandemia [31]. Existen publicaciones como los señala Martin Hoenigl et al. que indica que la mucormicosis asociada a COVID-19 se asocia con una alta morbilidad y mortalidad [32], diferente a nuestros resultados, donde no encontramos asociación. Por otro lado, autores como Dam, señalan que a veces, el COVID-19 es el único factor predisponente a la mucormicosis [33]. La compleja interacción entre mucor y el virus COVID-19 aún no se comprende bien, se necesitan más estudios al respecto [34].

CONCLUSIONES

Las únicas características asociadas a deceso en pacientes con MROC fueron la presencia de lisis ósea en la tomografía y la exenteración ocular. No hubo relación de la HBA1c elevada y mejora de la mortalidad al realizar exenteración y ni aumento de riesgo de mucormicosis en pacientes con Covid19. Dado que no hay consenso en la exenteración ni parece mejorar el pronóstico según nuestra serie deben tenerse en cuenta también los factores psicosociales en la indicación. Se recalca lo significativas que son las consecuencias físicas y psicosociales.

AGRADECIMIENTOS

Agradecemos al Instituto Mexicano del Seguro Social, como institución portadora de los casos, así mismo agradecer a nuestras autoridades de este nosocomio por las facilidades para realizar esta investigación.

BIBLIOGRAFÍA

1. Cámara López D, Reyes Castañeda EG, Cabrera Arévalo CE, Calvillo Rivera JG, Alonso Moctezuma A, Cámara López D, et al. Mucormicosis rino-órbito-cerebral: casuística en un hospital de tercer nivel en México, en 3 años. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2022;44(1):23-29.
2. Rahal EM, Moreno VM, Villa NJ. Mucormicosis rino-orbito-cerebral: Experiencia en doce años. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello.* 2008;68(1):27-34.
3. Bravo JH, Agudelo AM, Cortés A, Matta L. Rhino-orbito-cerebral mucormycosis from dental origin: Case report. *Biomed Rev Inst Nac Salud.* 2018;38(1):27-31.
4. Solano L, Morillo G, Gómez F, Díaz I, Mago H. Mucormicosis Rino-Orbito Cerebral En Paciente Con Diagnostico Presuntivo De COVID 19. *Bol Venez Infectol.* 2021;32(2). Disponible en: <https://boletinsvi.com/>
5. Raman M, Alagappan Y, Kumar NKS. Role of orbital exenteration in management of rhino-orbito-cerebral mucormycosis (ROCM) - A prospective analytical study. *IP Int J Ocul Oncol Oculoplasty.* 2022;8(3):185-189.
6. Piromchai P, Thanaviratnanich S. Impact of treatment time on the survival of patients suffering from invasive fungal rhinosinusitis. *Clin Med Insights Ear Nose Throat.* 2014;7:31-34.
7. Singh VP, Bansal C, Kaintura M. Sinonasal Mucormycosis: A to Z. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg Off Publ Assoc Otolaryngol India.* noviembre de 2019;71(Suppl 3):1962-1971.
8. Levensen M, Kiilgaard JF, Thomsen C, Heegaard S, Nissen KR. Medical and surgical treatment of rhino-orbital-cerebral mucormycosis in a child

- with leukemia. *Am J Ophthalmol Case Rep.* 2021;22:101092.
9. Vironneau P, Kania R, Herman P, Morizot G, Garcia-Hermoso D, Lortholary O, et al. Local control of rhino-orbito-cerebral mucormycosis dramatically impacts survival. *Clin Microbiol Infect.* 2014;20(5): 336-339.
 10. Jumaily M, Faraji F, Brunworth JD. Endoscopic orbital exenteration in the treatment of acute invasive fungal sinusitis. *Acta Oto-Laryngol Case Rep.* 1 de enero de 2016;1(1):58-62.
 11. Safi M, Ang MJ, Patel P, Silkiss RZ. Rhino-orbital-cerebral mucormycosis (ROCM) and associated cerebritis treated with adjuvant retrobulbar amphotericin B. *Am J Ophthalmol Case Rep.* 2020;19:100771.
 12. Murthy R, Bagchi A, Gote Y, Desai S. Retrobulbar injection of amphotericin B using intravenous cannula for post-COVID-19 rhino-orbital mucormycosis. *Indian J Ophthalmol.* 2022;70(1):302-305.
 13. Singh P, Gupta A, Sanepalli SR, Raj A. Transcutaneous retrobulbar amphotericin-B (TRAMB) injection in orbital mucormycosis. *BMJ Case Rep.* 31 de marzo de 2022;15(3):e246307.
 14. Hirabayashi KE, Kalin-Hajdu E, Brodie FL, Kersten RC, Russell MS, Vagefi MR. Retrobulbar Injection of Amphotericin B for Orbital Mucormycosis. *Ophthal Plast Reconstr Surg.* 2017;33(4):e94-7.
 15. Sharifi A, Akbari Z, Shafieei M, Nasiri N, Sharifi M, Shafiei M, et al. Retrobulbar Injection of Amphotericin B in Patients With COVID-19 Associated Orbital Mucormycosis: A Systematic Review. *Ophthal Plast Reconstr Surg.* 2022;38(5):425-432.
 16. Chakravarty J, Gupta MK, Tilak R, Kumar R, Maurya RP, Kumar N, et al. COVID-19-associated Mucormycosis: A clinico-epidemiological study. *J Diabetes Complications.* 2022;36(9):108284.
 17. Maurya RP. Indications for orbital exenteration in COVID-19 associated Rhino-orbito-cerebral Mucormycosis. *IP Int J Ocul Oncol Oculoplasty.* 2021;7(2):105-108.
 18. Honavar SG. Code Mucor: Guidelines for the Diagnosis, Staging and Management of Rhino-Orbito-Cerebral Mucormycosis in the Setting of COVID-19. *Indian J Ophthalmol.* 2021;69(6):1361-1365.
 19. Talmi YP, Goldschmied-Reouven A, Bakon M, Barshack I, Wolf M, Horowitz Z, et al. Rhino-orbital and rhino-orbito-cerebral mucormycosis. *Otolaryngol--Head Neck Surg Off J Am Acad Otolaryngol-Head Neck Surg.* 2002;127(1):22-31.
 20. Szekanecz Z, Vályi-Nagy I. Post-acute COVID-19 syndrome. *Orv Hetil.* 2021;162(27):1067-1078.
 21. Bhattacharyya A, Sarma P, Sharma DJ, Das KK, Kaur H, Prajapat M, et al. Rhino-orbital-cerebral-mucormycosis in COVID-19: A systematic review. *Indian J Pharmacol.* 2021;53(4):317-327.
 22. Watanabe A, So M, Mitaka H, Ishisaka Y, Takagi H, Inokuchi R, et al. Clinical Features and Mortality of COVID-19-Associated Mucormycosis: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Mycopathologia.* 2022;187(2-3):271-289.
 23. Hargrove RN, Wesley RE, Klippenstein KA, Fleming JC, Haik BG. Indications for orbital exenteration in mucormycosis. *Ophthal Plast Reconstr Surg.* 2006;22(4):286-291.
 24. Turner JH, Soudry E, Nayak JV, Hwang PH. Survival outcomes in acute invasive fungal sinusitis: a systematic review and quantitative synthesis of published evidence. *The Laryngoscope.* 2013;123(5):1112-1118.
 25. Sharma S, Grover M, Bhargava S, Samdani S, Kataria T. Post coronavirus disease mucormycosis: a deadly addition to the pandemic spectrum. *J Laryngol Otol.* 2021;135(5):442-447.
 26. Mishra N, Mutya VSS, Thomas A, Rai G, Reddy B, Mohanan AA, et al. A case series of invasive mucormycosis in patients with COVID-19 infection. *Int J Otorhinolaryngol Head Neck Surg.* 2021;7(5):867-870.
 27. Deb AK, Singh R, Kaliaperumal S, Alexander A, Gokhale T, Sarkar S. Rhino-orbito-cerebral Mucormycosis: Etiopathology, Clinical Features, Outcome, and the Factors Associated with Outcome. *Korean J Ophthalmol KJO.* 2022;36(4):356-365.
 28. Ackuaku-Dogbe EM, Biritwum RB, Briamah ZI. Psycho-Social Challenges Of Patients Following Orbital Exenteration. *East Afr Med J.* 2012;89(12):385-389.

29. Shah K, Dave V, Bradoo R, Shinde C, Prathibha M. Orbital Exenteration in Rhino-Orbito-Cerebral Mucormycosis: A Prospective Analytical Study with Scoring System. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg Off Publ Assoc Otolaryngol India.* 2019;71(2):259-265.
- 30.- Sharma, A., Goel, A. Mucormycosis: risk factors, diagnosis, treatments, and challenges during COVID-19 pandemic. *Folia Microbiol.* 2022;67:363–387.
31. Tayabali K, Pothiwalla H, Narayanan S. Epidemiology of COVID-19-Associated Mucormycosis. *Curr Fungal Infect Rep.* 2023:1-20. <https://doi.org/10.1007/s12281-023-00464-2>.
32. Hoenigl M, Seidel D, Carvalho A, Rudramurthy SM, Arastehfar A, Gangneux JP, Nasir N, Bonifaz A, Araiza J, Klimko N, Serris A, Lagrou K, Meis JF, Cornely OA, Perfect JR, White PL, Chakrabarti A; ECMM and ISHAM collaborators. The emergence of COVID-19 associated mucormycosis: a review of cases from 18 countries. *Lancet Microbe.* 2022;3(7):e543-e552. [https://doi.org/10.1016/S2666-5247\(21\)00237-8](https://doi.org/10.1016/S2666-5247(21)00237-8).
33. Dam P, Cardoso MH, Mandal S, Franco OL, Sağiroğlu P, Polat OA, Kokoglu K, Mondal R, Mandal AK, Ocsoy I. Surge of mucormycosis during the COVID-19 pandemic. *Travel Med Infect Dis.* 2023;52:102557. <https://orcid.org/10.1016/j.tmaid.2023.102557>.
34. Niranjana Nayak, Erum Khan, Debadatta Panigrahi, "COVID-19 and Mucormycosis Coinfection: How Challenging It Is", *Canadian Journal of Infectious Diseases and Medical Microbiology.* 2022;8617212:5. <https://doi.org/10.1155/2022/8617212>

EXENTERACIÓN OCULAR EN LA MUCORMICOSIS RINO-ÓRBITO-CEREBRAL
LUGO-MACHADO JA, GUTIÉRREZ-PÉREZ ML, ZAZUETA-CÁRDENAS A ET AL.

ANEXO 1

Tabla 1. Resumen de los resultados.

		n	%	Chi2 (valor p)	Odds ratio	IC 95%
Grupos de edad	19(55,9%) ≥60 años 15(44,1%) ≤59 años					
Edad	60.87 ± 11.8 años					
Sexo	Mujer	16	47.1	0.10		
	Varón	18	52.9			
Comórbidos	Solo diabetes mellitus	19	55,9%	0.914		
	Diabetes mellitus y otras comorbilidades	15	44,1%			
Lisis ósea en tomografía	Sí	17	50%	0.001	22.85	2.43 a 214.55
	No	17	50%			
Hallazgos clínicos	Manifestación orbitaria	23	67.7%			
	Manifestaciones orales y nasales	3	8.8%			
	Manifestaciones cerebrales	8	23.5%			
Exenteración del ojo	Sí	11	32.4%			
	No	23	67.7%			
Laboratorio						
Neutrófilos totales	<1800/ mm3	11	32.4%	0.000	3.659	1.351 a 9.911
	≥1800/ mm3	23	67.6%			
	HbA1Hc					
VSG	≤ 100 mm/h	23	67.6%	0.056	4.320	0.921 a 20.27
	≥110mm/h	11	32.4%			
PCR	≥30 mg/dL,	19	55.9%	0.035	1.60	0.367 a 7.019
	≤29 mg/dL	15	44.1%			
HbA1c	≤ 6%	19	55.9%	0.914		
	≥7%	15	44.1%			
Desenlace	Vivo	23	67.6%	0.001	17.77	2.944 a 107.37
	Muerto	11	32.4%			
Con covid-19		15	44.1%	0.171		
Sin covid-19		19	55.9%			

VSG: velocidad de sedimentación globular, *sin datos registrados Pcr: proteína c reactiva, HbA1hc: hemoglobina glicosilada. Fuente: expedientes clínicos del archivo clínico en el Hospital de Especialidades No. 2, UMAE, IMSS en Ciudad Obregón, Sonora, México.

EFFECTIVIDAD REAL DE LA TERAPIA BIOLÓGICA EN EL TRATAMIENTO DE PACIENTES CON RINOSINUSITIS CRÓNICA CON POLIPOSIS NASOSINUSAL

Real life effectiveness of biologics in the treatment of patients with chronic rhinosinusitis with nasosinus polyposis

Cristina GARCÍA-GARCÍA; Ithzel VILLARREAL-PATIÑO ; Adriana PARDO-MAZA ; Gabriela BOSCO-MORALES ; Estefanía MIRANDA-SÁNCHEZ ; Guillermo PLAZA-MAYOR 

Hospital Universitario de Fuenlabrada. Hospital Sanitas la Zarzuela. Hospital Nuestra Señora del Rosario. Hospital Universidad Rey Juan Carlos. Madrid. España.

Correspondencia: crisgar223@gmail.com

Fecha de recepción: 15 de enero de 2024

Fecha de aceptación: 23 de abril de 2024

Fecha de publicación: 27 de abril de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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 tratamiento de la rinosinusitis crónica con poliposis nasosinusual (RSCcPN) se basa en el uso de corticoterapia local intranasal, ciclos de corticoides sistémicos y cirugía endoscópica nasal. La terapia biológica está ganando cada vez más protagonismo en el tratamiento de esta patología en casos resistentes al tratamiento clásico. El objetivo de este trabajo es determinar la efectividad real de los tratamientos biológicos administrados para la RSCcPN fuera del ámbito de los ensayos clínicos. Método: Estudio retrospectivo sobre pacientes con RSCcPN y asma en tratamiento con terapia biológica en un hospital universitario. Analizaremos mediante un estudio de Wilcoxon signed-rank la eficacia de los distintos tratamientos biológicos administrados. Resultados: La muestra incluyó 21 pacientes con un seguimiento mínimo de 24 meses. Se evidenció una significación estadística ($p = <0,001$) en cuanto a la mejoría de la sintomatología, a excepción del olfato, así como de una mejoría del Nasal Polyp Score, el SNOT-22 y la escala Lund-Mackay en la TC. De los 21 pacientes, 7 de ellos (33%) han necesitado rescates con tratamiento

corticoideo a nivel sistémico. Sin embargo, no hubo que realizar una nueva CENS en ninguno de ellos. Discusión: Los datos obtenidos en este estudio de efectividad en práctica clínica real concuerdan con los obtenidos en ensayos clínicos acerca de la terapia biológica en la RSCcPN. Se han documentado reducciones notables en la carga de enfermedad de RSCcPN de forma objetiva y subjetiva, así como menor necesidad de rescate corticoideo oral o cirugía. Conclusiones: En nuestro estudio se ha corroborado la eficacia de la terapia biológica en prácticamente todos los datos analizados. Sin embargo, no se ha conseguido demostrar la relevancia de un tipo de terapia respecto a otra.

PALABRAS CLAVE: RSCcPNS; terapia biológica; respuesta Th2.

SUMMARY: Introduction and objective: Nowadays, treatment proposals for patients with recurrent sinonasal polyposis are based on the use of local intranasal corticosteroid therapy based on topical inhalers, cycles of systemic corticosteroids and endoscopic nasal surgery. Biological therapy is gaining more and more prominence in the treatment of this pathology. The objective of this work is based on determining which biological treatment of those administered today for this disease is more effective in managing symptoms and in its evolution. Method: Retrospective study of 21 patients with chronic rhinosinusitis with sinonasal polyposis and asthma under treatment with biological therapy at the University Hospital of Fuenlabrada. Using a Wilcoxon signed-rank study, we will analyze the efficacy of the different biological treatments administered. Results: A statistical significance with $p = <0,001$ was evidenced in terms of the improvement of the symptoms suffered by the study patients (with the exception of smell) as well as an improvement in the Nasal Polyp Score of 3 points. The Wilcoxon test result was statistical significance with $p = <0,001$. Discussion: The data obtained in this study agree with those obtained in studies on biological therapy in CRSwNP. Remarkable reductions in the disease burden of CRSwNP have been documented objectively and subjectively. This is consistent with the fact that our patients required fewer reinterventions throughout the procedure. Conclusions: In our study, the efficacy of biological therapy has been corroborated in practically all the data analyzed. However, it has not been possible to demonstrate the relevance of one type of therapy over another.

KEYWORDS: CRSwNP; biological therapy; Th2 respond.

INTRODUCCIÓN

La rinosinusitis crónica (RSC) es una enfermedad inflamatoria que afecta a la nariz y a los senos paranasales entre el 5-10% de la población general. La poliposis nasosinusal (PN) conforma un fenotipo importante dentro de la RSC, con mayor morbilidad y coste en el tratamiento de estos pacientes, presentando una prevalencia del 4% en Europa y EEUU [1]. En España, la prevalencia de rinosinusitis crónica con PN (RSCcPN) es del 3-6% [2]. Esta enfermedad afecta hasta tres veces más al sexo masculino y la clínica suele aparecer alrededor de la cuarta década de la vida [1, 2].

En muchas ocasiones, esta patología suele asociarse con otras principalmente el asma, aunque también puede asociarse con enfermedad respiratoria exacerbada por AINEs [1]. La presencia de RSCcPN se asocia con asma grave en el 70-90% de los casos, lo que modifica el abordaje terapéutico en muchos casos [2].

Numerosos procesos fisiopatológicos relacionados con la presencia de eosinófilos, basófilos y mastocitos, IgE elevada, circulante a nivel sistémico y local, así como la activación de IL-4, IL-5 e IL-13, intervienen en la cascada de señalización de respuestas inflamatorias tipo Th2 que se ha visto involucrada en el 85% de los pacientes

diagnosticados con RSCcPN [1-3]. Estos mismos procesos ya fueron descritos previamente en pacientes con diagnóstico de asma.

En la actualidad, las propuestas de tratamiento en pacientes que presentan RSCcPN se basan principalmente en el uso de corticoterapia local mediante inhaladores nasales y ciclos de corticoides sistémicos. Sin embargo, son muchos los pacientes que no responde al uso de corticoides tópicos o que requieren ciclos repetidos de corticoterapia oral. Por otro lado, en aquellos pacientes en los que se demuestra respuesta objetiva a este tipo de tratamientos, no se obtiene realmente una mejoría subjetiva por parte del paciente en síntomas como el olfato. Por lo tanto, se recurre a la cirugía endoscópica nasal (CENS) para la exéresis de los pólipos [1-3]. En muchas ocasiones deben realizarse varias intervenciones quirúrgicas tras el fracaso del tratamiento médico asumiendo el paciente el riesgo de recaída y la necesidad de una nueva intervención.

Con el auge de la denominada medicina personalizada, se han desarrollado en los últimos años terapias biológicas diseñadas para actuar contra la respuesta inflamatoria tipo Th2 [3-6]. Su uso en la RSCcPN ha quedado limitado a ensayos clínicos en marcha para su desarrollo, como es el caso de omalizumab, benralizumab, dupilumab y mepolizumab [4]. Sin embargo, estos tratamientos, en España, al estar incluidos en ficha técnica para el tratamiento del asma grave, han sido también utilizados esporádicamente para la RSCcPN en algunos pacientes con RSCcPN y asma severa hasta diciembre de 2023.

En este estudio analizaremos de manera retrospectiva los pacientes diagnosticados de RSCcPN y asma severa en tratamiento con fármacos biológicos, evaluando en la vida real, cómo ha evolucionado la enfermedad, el requerimiento de otras terapias como corticoides intranasales o sistémicos, la necesidad de CENS y la eventual presencia de complicaciones derivadas de estos fármacos.

MATERIAL Y MÉTODO

Previo aprobado por el CEIm del Hospital Universitario de Fuenlabrada (HUF) en noviembre de 2022, se ha realizado un estudio retrospectivo, en el que se han incluido pacientes con RSCcPN y asma severa que habían iniciado tratamiento con terapia biológica dirigida contra la respuesta inflamatoria Th2 en el Hospital Universitario de Fuenlabrada hasta enero de 2021, con un seguimiento mínimo de 24 meses.

Se ha analizado la evolución clínica de forma tanto subjetiva como objetiva de pacientes tratados con omalizumab (anti-IgE), benralizumab (anti IL-5R), reslizumab (anti IL-5), dupilumab (anti IL-4R/IL-13R) y mepolizumab (anti IL-5).

Para ello, se han recogido las distintas variables demográficas en posible relación con la patología estudiada, así como las comorbilidades de nuestros pacientes. Se analizó el uso del tratamiento corticoideo tópico intranasal y vía oral requerido por los sujetos a estudio, previo al inicio de la terapia biológica elegida y también tras después de iniciarla. Además, se recogió el número de CENS a los que fueron sometidos, tanto previas al inicio del tratamiento biológico como durante el mismo.

Se revisaron los resultados de la encuesta SNOT-22 y las escalas visuales analógicas (EVA) para evaluar la clínica evidenciada por los sujetos en relación a congestión nasal, rinorrea, presión facial y olfato, tanto antes de la terapia como en el momento de recogida de datos del estudio después del inicio de la terapia biológica.

La evaluación clínica se estudió con pruebas objetivas mediante el NPS (Nasal Polyp Score) en la exploración fibroendoscópica y con la clasificación de Lund-Mackay en la tomografía computarizada (TC) de senos paranasales. Se compararon los resultados obtenidos en las exploraciones y pruebas realizadas pre y post tratamiento.

Para realizar el análisis estadístico, se usó la prueba *Wilcoxon signed-rank* con una significación estadística del 5% y un poder estadístico del 10%

en busca de diferencias significativa de las variables recogidas.

RESULTADOS

En total, en el HUF hasta enero de 2021 se inició la administración de tratamientos biológicos contra patología relacionada con una respuesta inflamatoria Th2 a 142 pacientes. De todos ellos, a 96 pacientes se les ha indicado por asma de difícil control, de los cuales 22 pacientes presentaban de forma concomitante RSCcPN. Un paciente falleció en abril de 2021 por causas ajenas a la terapia biológica, por tanto, se excluyó del estudio, dejando una muestra de 21 pacientes con un seguimiento mínimo de 24 meses.

En la Tabla 1 queda registrada la distribución en cuanto a sexo, edad, comorbilidades asociadas y la necesidad de tratamiento corticoideo o quirúrgico.

Los fármacos biológicos suministrados a estos pacientes se distribuyeron de la siguiente forma: mepolizumab en 7/21 (33%), reslizumab en 5/21 (24%), benralizumab en 5/21 (24%), omalizumab en 3/21 (14%) y dupilumab en un caso (5%) (Tabla 1).

En nuestro estudio, 13 pacientes (61,9%) requirieron cambiar de tratamiento biológico debido a

empeoramiento o no mejoría de la clínica asmática, precisando rescates con tratamiento corticoideo o ingresos hospitalarios repetidos. De ellos, en 7 casos (33,3%) cambiaron de omalizumab a otro tratamiento biológico: en 4 a benralizumab y 3 a mepolizumab. Por otro lado, 6 casos (28,5%) cambiaron mepolizumab por otro fármaco: en 5 (33,3%) a reslizumab, en uno (16,6%) a dupilumab, y en dos de ellos (33,3%) cambiaron primero a benralizumab y posteriormente se mantuvieron con reslizumab (Figura 1).

La media de tiempo total en tratamiento con biológicos fue de 5 años (mediana: 5 años), aunque todos los pacientes continúan en tratamiento con dichos fármacos tras la finalización del estudio en diciembre de 2023. El tiempo medio de tratamiento con cada biológico se distribuyó de la siguiente forma: la media de meses en tratamiento con omalizumab fue de 7 años (mediana: 8), en el caso de mepolizumab fue de 4 años (mediana: 4 años), para reslizumab una media de 3 años (mediana: 3 años), para benralizumab 4 años (mediana: 4 años) y para dupilumab 2 años.

Del total de la serie, sólo dos pacientes presentaron efectos adversos leves (9,5%), ambos en tratamiento con benralizumab. Uno de ellos presenta cefaleas leves y hormigueos en miembros superiores tras administración, pero no requirió cambio en

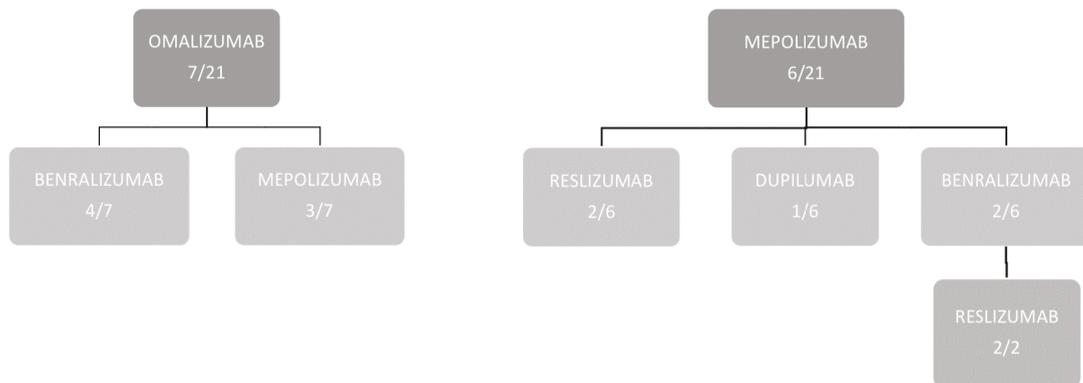


Figura 1. Rotación del tratamiento biológico en los pacientes sometidos al estudio.

Tabla 1. Datos demográficos y distribución del tratamiento administrado a los pacientes del estudio.

Variable	Subvariable	Resultado
Sexo	Hombres	11
	Mujeres	10
Edad		54 años
Comorbilidades	EREA	9
	RGE	8
	Sensibilización a polen, gramíneas	7
	Fumador	6
	AOS	4
	Rinosinusitis fúngica alérgica	1
Cirugía pretratamiento	CENS funcional	15
	CENS Radical	6
Biológicos	Mepolizumab	7
	Reslizumab	5
	Benralizumab	5
	Omalizumab	3
	Dupilumab	1
Terapia corticoidea durante tratamiento biológico	Tópico	14
	Oral	7

EREA: enfermedad respiratoria exacerbada por Aines, RGE: reflujo gastroesofágico, AOS: apnea obstructiva del sueño, CENS: cirugía endoscópica nasosinusal.

su terapia biológica. Sin embargo, otro paciente presentó sudoraciones y náuseas tras la administración de este fármaco siendo necesario cambiarlo por reslizumab.

El SNOT-22 previo al tratamiento con biológicos obtuvo una media de 76 puntos (Figura 2), la cual se redujo en 46 puntos tras el tratamiento, siendo la mejoría estadísticamente significativa. Mediante escalas EVA, la sintomatología de los pacientes antes y después del tratamiento mejoró de forma significativa en 4 de los 5 síntomas estudiados (Tabla 2 y Figura 3). Así, para la obstrucción nasal se obtuvo una mejoría de 8 a 4 puntos, de forma significativa, una mejoría que referían el 86% de los pacientes. Para el olfato, se pasó de 4 a 6 puntos, una mejoría del olfato que refirieron el 76% de los pacientes, pero no estadísticamente significativa.

En cuanto al NPS, la media de se redujo de 5 a 2 puntos, una diferencia estadísticamente significativa ($p = <0,001$) (Figura 4 y Tabla 2). Analizando la clasificación de Lund-Mackay antes del inicio de la terapia biológica y posterior a la

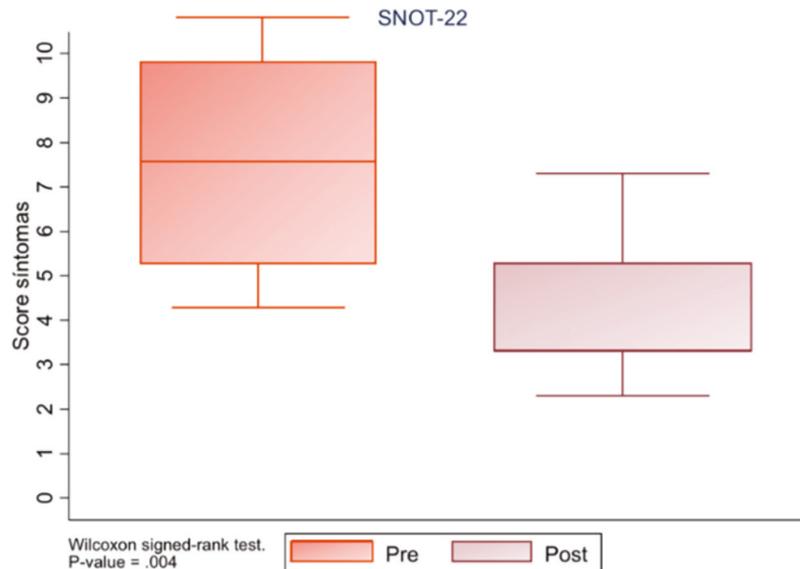


Figura 2. Diagrama de caja y bigotes, mejoría del SNOT-22 tras el tratamiento biológico, con una p significativamente estadística menor a 0,001.

EFFECTIVIDAD REAL DE LA TERAPIA BIOLÓGICA EN EL TRATAMIENTO DE PACIENTES
 CON RINOSINUSITIS CRÓNICA CON POLIPOSIS NASOSINUSAL
 GARCÍA-GARCÍA C, VILLARREAL-PATIÑO I, PARDO-MAZA A ET AL.

Tabla 2. Análisis estadístico de las variables a estudio.

	Media prebiológico	Media postbiológico	p estadística
NPS	6	2	<0,001
Lund-Mckay	12	6	<0,001
SNOT-22	76	40	<0,001
Obstrucción nasal	7	4	<0,001
Congestión nasal	7	4	<0,001
Olfato	5	5	0,063
Rinorrea	6	4	<0,001
Presión facial	4	3	0,004

misma, varió de 10 a 6 puntos, de nuevo una diferencia estadísticamente significativa ($p = <0,001$). Sin embargo, no se demostró una diferencia estadísticamente significativa entre los distintos fármacos (Figura 5).

De los 21 pacientes, 7 de ellos (33%) han necesitado rescates con tratamiento corticoideo a nivel sistémico. Sin embargo, no hubo que realizar una nueva CENS en ninguno de ellos, a pesar de que todos habían sido operados más de una vez previamente al inicio del tratamiento biológico.

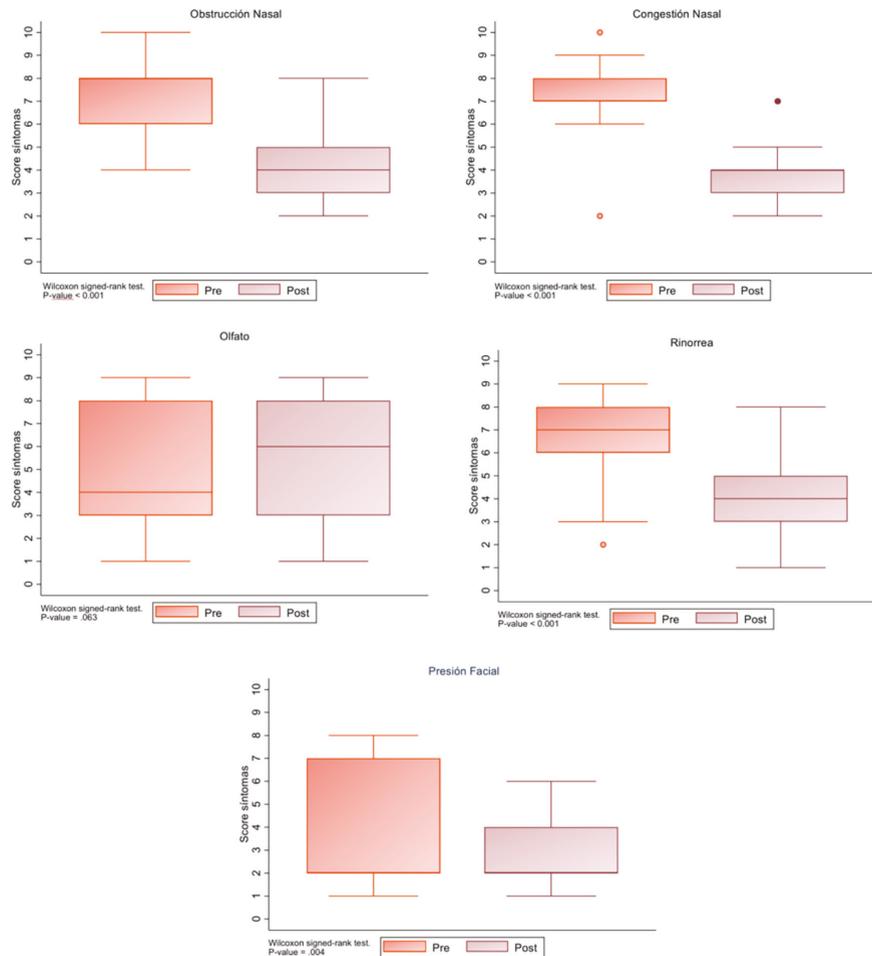


Figura 3. Diagrama de caja y bigotes, mejoría en las escalas VAS tras el tratamiento biológico, con una p significativamente estadística menor a 0,001.

EFFECTIVIDAD REAL DE LA TERAPIA BIOLÓGICA EN EL TRATAMIENTO DE PACIENTES
CON RINOSINUSITIS CRÓNICA CON POLIPOSIS NASOSINUSAL
GARCÍA-GARCÍA C, VILLARREAL-PATIÑO I, PARDO-MAZA A ET AL.

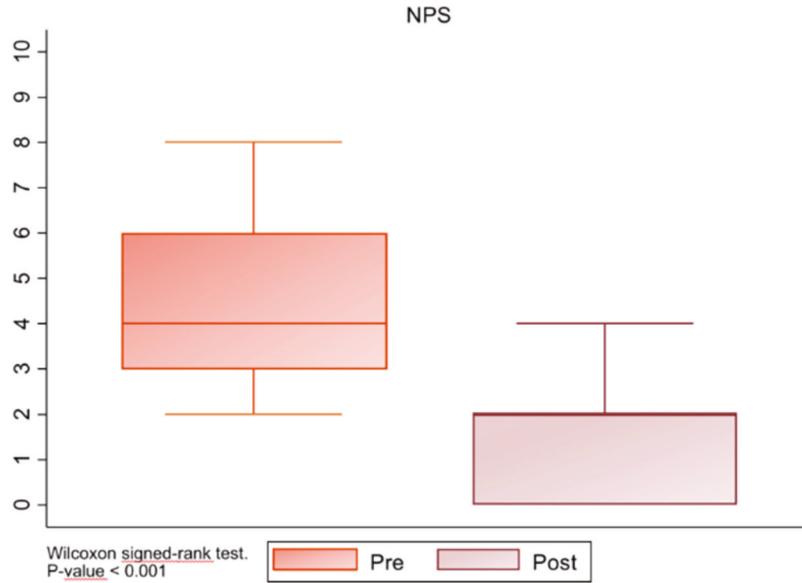


Figura 4. Diagrama de caja y bigotes, mejoría del NPS tras el tratamiento biológico, con una p significativamente estadística menor a 0,001.

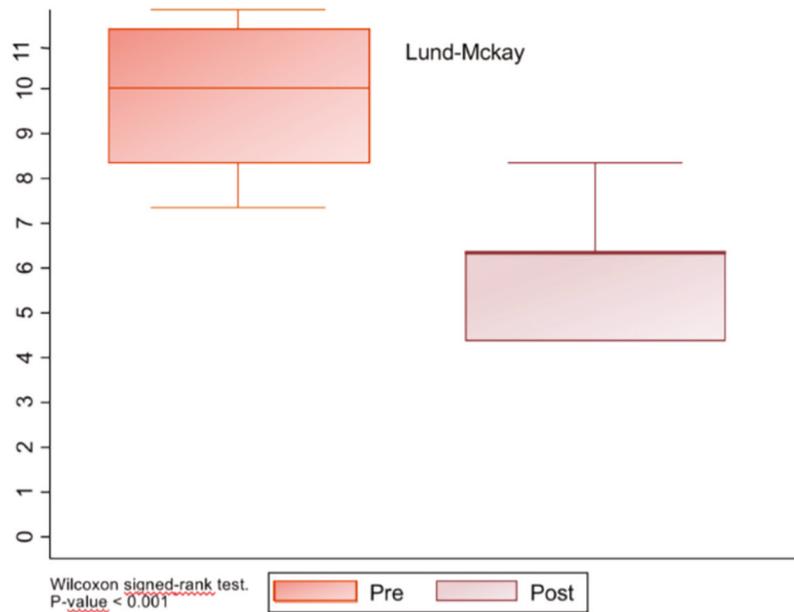


Figura 5. Diagrama de caja y bigotes, mejoría de la clasificación de Lund McKay tras el tratamiento biológico, con una p significativamente estadística menor a 0,001.

DISCUSIÓN

Aproximadamente, hasta un tercio de los pacientes con RSCcPNS padecen mal control de la enfermedad con tratamientos convencionales [1,2]. Debido a la base inflamatoria tipo Th2 que tiene esta enfermedad, los fármacos biológicos, desarrollados inicialmente para el asma grave o la dermatitis atópica, se han aplicado con éxito a pacientes con RSCcPNS [3-6]. Recientemente se han concluido ensayos clínicos de fase III para dupilumab [7], omalizumab [8] o mepolizumab [9], con muy buenos resultados a largo plazo, como se refleja en varias revisiones y metanálisis [4,5,10-15].

En este estudio hemos podido comprobar que la terapia biológica es efectiva en el tratamiento de la sintomatología de pacientes con RSCcPNS y asma grave en situación real, fuera del entorno de un ensayo clínico. Hemos obtenido resultados estadísticamente significativos en prácticamente todas las variables analizadas que interfieren en la vida de nuestros pacientes como son la congestión nasal, la obstrucción nasosinusal, la rinorrea o la presión facial. Además, sólo un 33% de nuestros pacientes han necesitado rescates con tratamiento corticoideo a nivel sistémico, a pesar de padecer asma grave. Así mismo, debemos destacar que ningún paciente precisó de una nueva CENS.

Estos resultados en la vida real coinciden con los publicados por otros autores en numerosos estudios en los últimos dos años [16-30]. Algunos trabajos han intentado comparar la efectividad real de diferentes anticuerpos monoclonales [16-18]. Así, Haxel et al. [16] han analizado la efectividad del dupilumab y el omalizumab en la RSCcPNS y asma severa sobre 49 y 21 pacientes respectivamente. Observaron una mejoría en el NPS, en los parámetros de calidad de vida y en la función olfatoria en dos tercios de los pacientes con un seguimiento de 12 meses. De forma similar, una comparación en vida real de la efectividad de benralizumab, mepolizumab y omalizumab en pacientes con RSCcPNS y asma severa concomitante fue realizada por Tiotiu

et al. [17] incluyendo 16 casos tratados con benralizumab, 21 con mepolizumab y 35 con omalizumab con un seguimiento de 6 meses. Concluyeron que benralizumab y mepolizumab fueron más efectivos en el control del NPS y el recuento de eosinófilos en sangre, si bien los tres anticuerpos monoclonales mejoraron de manera global los síntomas nasales y de asma. Gerstacker y su grupo [18] realizaron un estudio retrospectivo para evaluar la eficacia de los biológicos en pacientes con RSCcPNS en un escenario de la vida real, demostrando una mejoría en la calidad de vida de los pacientes, síntomas, tamaño polipoideo, con raras complicaciones. Nuestra serie muestra similares resultados, con un seguimiento mayor, a dos años.

Analizando cada biológico por separado, para el mepolizumab hay dos trabajos en vida real [19,20]. Detoraki et al. [19] evaluaron el mepolizumab en 44 pacientes con RSCcPNS y asma eosinofílica severa. Hallaron una mejoría significativa en los síntomas nasosinuales y pulmonares, reduciendo el NPS, SNOT-22 y el porcentaje de eosinófilos en las citologías nasales. Domínguez et al. [20] realizaron un estudio en un centro retrospectivo sobre 55 pacientes con RSCcPNS y asma severa en donde objetivaron una mejoría significativa en NPS, en EVA de síntomas, en el *Asthma Control Test (ACT)*, en el óxido nítrico exhalado, en el recuento de eosinófilos en sangre y en la necesidad de administración de prednisona oral tras 6 meses de tratamiento con mepolizumab. Todos los parámetros estudiados mostraron una mejoría notable, dando como resultado un incremento destacado en la calidad de vida de los pacientes con RSCcPNS independientemente de la presencia o ausencia de asma o de la EREA (enfermedad respiratoria exacerbada por aspirina).

Más numerosos son los trabajos sobre dupilumab en práctica clínica real [21-29]. Todos ellos demostraron un progreso adecuado con respecto a los cuestionarios de calidad de vida y el NPS en pacientes con RSCcPNS y asma. Sin embargo, destacan la necesidad de monitorización a corto y largo

plazo de la elevación de los eosinófilos en sangre. La Mantia et al. [26] destacaron además el efecto del dupilumab en el olfato, siendo la mejoría claramente más rápida en los pacientes tratados con dicho biológico que en los pacientes con tratamiento corticoideo, independientemente de la severidad de la inflamación tipo 2, del volumen de los pólipos y de la sintomatología subjetiva del paciente. Galletti et al. [29] realizaron un estudio sobre la efectividad y la seguridad del dupilumab en 170 pacientes con RSCcPNS seguidos durante 12 meses, insistiendo en que dicho tratamiento monoclonal debe ser un siempre asociado a una terapia corticoidea intranasal para lograr el efecto deseado con respecto a la mejora en la calidad de vida, severidad de los síntomas, tamaño polipoideo y olfato.

Respecto al omalizumab, Maza et al. [30] han presentado una serie retrospectiva sobre 55 pacientes con RSCcPNS y asma con una respuesta notable al biológico pasados 2 años de inicio del tratamiento. Objetivaron una mejoría temprana en los cuestionarios de calidad de vida, escalas de síntomas, NPS y SNOT 22. Dividieron la muestra en cuatro grupos, siendo superior la respuesta en los pacientes que habían sido operados de CENS al menos una vez en los 10 años previos al tratamiento con omalizumab.

En nuestro estudio, en un primer momento, se quiso determinar la existencia de diferencias en cuanto a la mejoría clínica, radiológica y física de nuestros pacientes en función del tratamiento biológico recibido. Sin embargo, muchos de estos pacientes habían recibido diferentes terapias biológicas a lo largo de su enfermedad para controlar la clínica asmática, siendo frecuente la necesidad de cambiar uno por otro, como refleja la literatura [31,32].

Brkic et al. [31] estudiaron una muestra de 195 pacientes con RSCcPNS o EREA tratados con biológicos donde el 12% de la muestra necesitó un cambio de tratamiento por mal control de su sintomatología. Esto se reflejó en una mejoría del control de su patología a largo plazo. La gran

mayoría de ellos (73,9%) requirió un cambio de omalizumab a dupilumab, resultados similares a los de nuestro estudio [31,32].

Una vez demostrada la efectividad en práctica clínica real de los biológicos en la RSCcPNS, la siguiente pregunta sería determinar qué tratamiento biológico presenta mejores resultados. En nuestro estudio no pudimos hallar diferencias entre ellos. Hasta la fecha, tampoco hay trabajos prospectivos que comparen en el mismo estudio diferentes tratamientos biológicos en pacientes con RSCcPN. Existen cuatro revisiones sistemáticas y metaanálisis que intentan buscar el mejor biológico [12-15]. Agache et al. [12] realizaron una revisión sistemática para evaluar la eficacia y seguridad de los distintos tratamientos biológicos en la RSCcPNS, hallando que dupilumab también obtuvo los mejores resultados, tanto la mejoría de la calidad de vida de los pacientes como en el uso de tratamiento corticoideo de rescate o sobre la necesidad de cirugías de rescate, con un buen perfil de seguridad. Omalizumab también mostró buenos resultados, aunque el número de efectos adversos presentados con este fármaco fue mayor, mientras que reslizumab y mepolizumab aun presentan resultados inciertos según este análisis [14].

Chong et al. [13] realizaron una revisión bibliográfica para la agencia Cochrane acerca del tratamiento con biológicos en la RSC, donde analizaron 10 metanálisis concluyendo que el tratamiento con biológicos obtiene una tasa de respuesta del 50-70%, aunque se desconoce todavía el perfil ideal de pacientes que se benefician de este tipo de tratamiento. No se hallaron diferencias significativas de nuevo entre los distintos fármacos y se plantea la duda acerca de la efectividad de este tratamiento en pacientes con RSCcPNS menos grave.

El metanálisis más citado es publicado por Oykhman et al. [14] incluyendo 29 ensayos clínicos y 3461 sujetos. Determinaron que el tratamiento con biológicos en la RSCcPN mejora los resultados de los pacientes, con diferencias clínicamente importantes en los efectos entre los agentes,

obteniendo dupilumab mejores resultados, especialmente en la indicación de cirugía de rescate, que se redujo en un 216% con dupilumab, 212% con mepolizumab y 27% con omalizumab. De igual manera, Papacharalampous et al. [15] realizaron una revisión sistemática que incluyó 37 estudios para valorar la eficacia en el tratamiento de la RSCcPNS con omalizumab, dupilumab y mepolizumab. Dupilumab fue el fármaco con mejores resultados, aunque debido a la diferencia metodológica de los estudios, la evidencia científica demostrada aun no es lo suficientemente fuerte.

Entre las limitaciones de nuestro estudio, debemos destacar que se trata de un estudio retrospectivo, con una muestra unicéntrica de tamaño limitado. Además, todos los pacientes padecían asma severo, por lo que no representan una muestra homogénea de pacientes con

RSCcPN, sino un grupo seleccionado.

CONCLUSIONES

La terapia biología en pacientes con RSCcPN ha supuesto una revolución en los últimos años, ya que se ha demostrado que producen una mejoría clínica significativa.

En nuestro estudio se ha corroborado esta efectividad en clínica real tanto en las escalas usadas como SNOT-22, como en el tamaño de los pólipos en NPS o en la TC. Además, sólo un tercio de los pacientes precisaron rescates con corticoides orales y ninguno de los pacientes necesitó de una nueva CENS pasados al menos dos años de seguimiento.

BIBLIOGRAFÍA

1. Fokkens WJ, Lund VJ, Hopkins C, Hellings PW, Kern R, Reitsma S, et al. European Position Paper on Rhinosinusitis and Nasal Polyps 2020. *Rhinology*. 2020;58(Suppl S29):1-464. <https://doi.org/10.4193/Rhin20.600>
2. Alobid I, Colás C, Castillo JA, Arismendi E, Del Cuvillo A, Gómez-Outes A, et al. POLINA group. Spanish Consensus on the Management of Chronic Rhinosinusitis With Nasal Polyps (POLIposiNasal/POLINA 2.0). *J Investig Allergol Clin Immunol*. 2023;33(5):317-331. <https://doi.org/10.18176/jiaci.0910>
3. Fokkens WJ, Lund V, Bachert C, Mullol J, Bjermer L, Bousquet J, et al. EUFOREA consensus on biologics for CRSwNP with or without asthma. *Allergy*. 2019;74(12):2312-2319. <https://doi.org/10.1111/all.13875>
4. Bachert C, Desrosiers MY, Hellings PW, Laidlaw TM. The Role of Biologics in Chronic Rhinosinusitis with Nasal Polyps. *J Allergy Clin Immunol Pract*. 2021;9(3):1099-1106. <https://doi.org/10.1016/j.jaip.2020.11.017>
5. Bachert C. Biologics in chronic rhinosinusitis with nasal polyps. Zhang L, Bachert C, editors. *Chronic Rhinosinusitis: The Mucosal Concept*. Springer Nature Singapore. 2022:411-21.
6. Borish L, Cohen NA, Chupp G, Hopkins C, Wagenmann M, Sousa AR, et al. Evaluating enrollment and outcome criteria in trials of biologics for chronic rhinosinusitis with nasal polyps. *Ann Allergy Asthma Immunol*. 2022;129(2):160-168. <https://doi.org/10.1016/j.anai.2022.04.004>
7. Bachert C, Han JK, Desrosiers M, Hellings PW, Amin N, Lee SE, et al. Efficacy and safety of dupilumab in patients with severe chronic rhinosinusitis with nasal polyps (LIBERTY NP SINUS-24 and LIBERTY NP SINUS-52): results from two multicentre, randomised, double-blind, placebo-controlled, parallel-group phase 3 trials. *Lancet*. 2019;394(10209):1638-1650. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(19\)31881-1](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(19)31881-1)
8. Gevaert P, Omachi TA, Corren J, Mullol J, Han J, Lee SE, et al. Efficacy and safety of omalizumab in nasal polyposis: 2 randomized phase 3 trials. *J Allergy Clin Immunol*. 2020; 146(3):595-605. <https://doi.org/10.1016/j.jaci.2020.05.032>
9. Han JK, Bachert C, Fokkens W, Desrosiers M, Wagenmann M, Lee SE, et al. SYNAPSE study investigators. Mepolizumab for chronic rhinosinusitis with nasal polyps (SYNAPSE): a randomised, double-blind, placebo-controlled, phase 3 trial. *Lancet Respir Med*. 2021; 9(10):

- 1141-1153. [https://doi.org/10.1016/S2213-2600\(21\)00097-7](https://doi.org/10.1016/S2213-2600(21)00097-7)
10. Bachert C, Gevaert P, Hellings P. Biotherapeutics in Chronic Rhinosinusitis with and without Nasal Polyps. *J Allergy Clin Immunol Pract*. 2017;5(6):1512-1516. <https://doi.org/10.1016/j.jaip.2017.04.024>
 11. Patel GB, Peters AT. The Role of Biologics in Chronic Rhinosinusitis With Nasal Polyps. *Ear Nose Throat J*. 2021;100(1):44-47. <https://doi.org/10.1177/0145561320964653>
 12. Agache I, Song Y, Alonso-Coello P, Vogel Y, Rocha C, Solà I, et al. Efficacy and safety of treatment with biologics for severe chronic rhinosinusitis with nasal polyps: A systematic review for the EAACI guidelines. *Allergy*. 2021;76(8):2337-2353. <https://doi.org/10.1111/all.14809>
 13. Chong LY, Piromchai P, Sharp S, Snidvongs K, Webster KE, Philpott C, et al. Biologics for chronic rhinosinusitis. *Cochrane Database Syst Rev*. 2021;3(3):CD013513. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD013513.pub3>
 14. Oykman P, Paramo FA, Bousquet J, Kennedy DW, Brignardello-Petersen R, Chu DK. Comparative efficacy and safety of monoclonal antibodies and aspirin desensitization for chronic rhinosinusitis with nasal polyposis: A systematic review and network meta-analysis. *J Allergy Clin Immunol*. 2022;149(4):1286-95. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jaci.2021.09.009>
 15. Papacharalampous GX, Constantinidis J, Fotiadis G, Zhang N, Bachert C, Katotomichelakis M. Chronic rhinosinusitis with nasal polyps (CRSwNP) treated with omalizumab, dupilumab, or mepolizumab: A systematic review of the current knowledge towards an attempt to compare agents' efficacy. *Int Forum Allergy Rhinol*. 2024;14(1):96-109. <https://doi.org/10.1002/alr.23234>
 16. Haxel BR, Hummel T, Fruth K, Lorenz K, Gunder N, Nahrath P, Cuevas M. Real-world-effectiveness of biological treatment for severe chronic rhinosinusitis with nasal polyps. *Rhinology*. 2022;60(6):435-443. <https://doi.org/10.4193/Rhin22.129>
 17. Tiotiu A, Mendez-Brea P, Ioan I, Romero-Fernandez R, Oster JP, Hoang TC, et al. Real-Life Effectiveness of Benralizumab, Mepolizumab and Omalizumab in Severe Allergic Asthma Associated with Nasal Polyps. *Clin Rev Allergy Immunol*. 2023;64(2):179-192. <https://doi.org/10.1007/s12016-022-08938-w>
 18. Gerstaecker K, Ketterer MC, Jakob TF, Hildenbrand T. Real Life Observational Study of Treatment Success of Monoclonal Antibodies for Refractory Chronic Rhinosinusitis with Nasal Polyps. *J Clin Med*. 2023;12(13):4374. <https://doi.org/10.3390/jcm12134374>
 19. Detoraki A, Tremante E, D'Amato M, Calabrese C, Casella C, Maniscalco M, et al. Mepolizumab improves sino-nasal symptoms and asthma control in severe eosinophilic asthma patients with chronic rhinosinusitis and nasal polyps: a 12-month real-life study. *Ther Adv Respir Dis*. 2021;15. <https://doi.org/10.1177/17534666211009398>
 20. Domínguez-Sosa MS, Cabrera-Ramírez MS, Marrero-Ramos MDC, Dávila-Quintana D, Cabrera-López C, Carrillo-Díaz T, et al. Real-Life Effectiveness of Mepolizumab in Refractory Chronic Rhinosinusitis with Nasal Polyps. *Biomedicines*. 2023;11(2):485. <https://doi.org/10.3390/biomedicines11020485>
 21. Kilty SJ, Lasso A. Canadian real-world study of access and clinical results using dupilumab for chronic rhinosinusitis with polyps. *J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2022;51(1):17. <https://doi.org/10.1186/s40463-022-00570-0>
 22. Book R, Eligal S, Tal Y, Eliashar R. Biological Treatment for Uncontrolled Chronic Rhinosinusitis with Nasal Polyps: Preliminary Real-World Results from a Tertiary Medical Center. *J Clin Med*. 2023;12(11):3671. <https://doi.org/10.3390/jcm12113671>
 23. Boscke R, Heidemann M, Bruchhage KL. Dupilumab for chronic rhinosinusitis with nasal polyps: real-life retrospective 12-month effectiveness data. *Rhinology*. 2023;61(3):203-213. <https://doi.org/10.4193/Rhin22.469>
 24. Albrecht T, Sailer MM, Capitani F, van Schaik C, Löwenheim H, Becker S. Real-world evidence

- for the effectiveness and safety of dupilumab in patients with CRSwNP after 1 year of therapy. *World Allergy Organ J.* 2023;16(5):100780. <https://doi.org/10.1016/j.waojou.2023.100780>
25. Mocellin D, Ioppi A, Gaglio G, Pennacchi A, Bertolini M, Tirrito A, et al. Severe chronic rhinosinusitis treated with dupilumab, a real-life analysis of early effectiveness. *Eur Rev Med Pharmacol Sci.* 2023;27(15):7324-7336. https://doi.org/10.26355/eurrev_202308_33304
26. La Mantia I, Grigaliute E, Ragusa M, Cocuzza S, Radulesco T, Saibene AM, et al. Effectiveness and rapidity on olfactory function recovery in CRS patients treated with Dupilumab: a real life prospective controlled study. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2024;281:219-226. <https://doi.org/10.1007/s00405-023-08184-6>
27. Campion NJ, Brugger J, Tu A, Stanek V, Brkic FF, Bartosik TJ, Liu DT, et al. The "real life" efficacy of dupilumab is independent of initial polyp size and concomitant steroids in CRSwNP. *J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2023;52(1):56. <https://doi.org/10.1186/s40463-023-00663-4>
28. De Corso E, Pasquini E, Trimarchi M, La Mantia I, Pagella F, Ottaviano G, et al. Dupireal Italian Study Group. Dupilumab in the treatment of severe uncontrolled chronic rhinosinusitis with nasal polyps (CRSwNP): A multicentric observational Phase IV real-life study (DUPIREAL). *Allergy.* 2023;78(10):2669-2683. <https://doi.org/10.1111/all.15772>
29. Galletti C, Ragusa M, Sireci F, Ciodaro F, Barbieri MA, Giunta G, et al. Dupilumab in chronic rhinosinusitis with nasal polyps: Real life data in a multicentric Sicilian experience. *Am J Otolaryngol.* 2023;45(1):104106. <https://doi.org/10.1016/j.amjoto.2023.104106>
30. Maza-Solano J, Callejon-Leblic A, Martin-Jimenez D, Moreno-Luna R, Gonzalez-Garcia J, Cuvillo A, et al. Omalizumab Treatment in Uncontrolled Asthma and CRSwNP Patients, with Previous Endoscopic Sinus Surgery, to Improve Quality of Life and Endoscopic Outcomes: a Two-Year Real-Life Study. *Curr Allergy Asthma Rep.* 2023;23(10):555-566. <https://doi.org/10.1007/s11882-023-01106-w>
31. Brkic FF, Liu DT, Klimbacher R, Campion NJ, Bartosik TJ, Vyskocil E, et al. Efficacy and safety of switching between biologics in chronic rhinosinusitis with nasal polyps or N-ERD. *Rhinology.* 2023;61(4):320-327. <https://doi.org/10.4193/Rhin22.408>
32. Nagase H, Suzukawa M, Oishi K, Matsunaga K. Biologics for severe asthma: The real-world evidence, effectiveness of switching, and prediction factors for the efficacy. *Allergol Int.* 2023; 72(1):11-23. <https://doi.org/10.1016/j.alit.2022.11.008>

ABORDAJES QUIRÚRGICOS DEL ESPACIO PARAFARÍNGEO. COMPARACIÓN DE ABORDAJES EXTERNOS Y ENDOSCÓPICOS. REVISIÓN SISTEMÁTICA

Surgical approaches to the parapharyngeal space. A comparison of external and endoscopic approaches. Systematic review

Juan LOSADA-CAMPA¹; Luis Miguel TORRES-MORIENTES¹; Juan Francisco PASTOR-VÁZQUEZ²; Eduardo TAMAYO-GÓMEZ³; Marta MARTÍN-FERNÁNDEZ⁴; Jaime SANTOS-PÉREZ¹

¹Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de la Cabeza y Cuello, Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Avenida de Ramón y Cajal, 3. 47003 – Valladolid.

²Departamento de Anatomía y Radiología. Facultad de Medicina de la Universidad de Valladolid. Av. Ramón y Cajal, 7, 47003 – Valladolid.

³Servicio de Anestesiología y Reanimación, Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Avenida de Ramón y Cajal, 3. 47003 – Valladolid.

⁴Facultad de Medicina de la Universidad de Valladolid. Av. Ramón y Cajal, 7, 47003 – Valladolid.

Correspondencia: jlosadacampa@gmail.com

Fecha de recepción: 22 de diciembre de 2023

Fecha de aceptación: 23 de abril de 2024

Fecha de publicación: 27 de abril de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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 espacio parafaríngeo es un espacio profundo cráneo-cervical donde los tumores primarios son excepcionales, constituyendo únicamente un 0,5% de todas las neofor-maciones de cabeza y cuello. Las lesiones benignas representan el 70-80%, siendo el adenoma pleomorfo el tumor más frecuente en esta localización. El tratamiento de elección en la actualidad continúa siendo la resección quirúrgica completa de la lesión. Si bien clásicamente el tipo de abordaje quirúrgico más utilizado ha sido el abordaje externo, actualmente, con la aparición de técnicas endoscópicas, se han descrito nuevos métodos de abordaje útiles para la resección de tumores parafaríngeos. Método: Presentamos una revisión

sistemática sobre los abordajes quirúrgicos externo, endonasal y transoral del espacio parafaríngeo, con un total de 1725 pacientes y 92 (lados) de cadáveres donde se analizó el tipo de abordaje utilizado/estudiado en cada cirugía, comparando tanto las ventajas como inconvenientes que ofrecen cada uno de ellos. Resultados: La revisión sistemática cuenta con un total de 40 artículos, 1654 pacientes y 92 (lados) de cadáveres donde se analizó el tipo de abordaje utilizado/estudiado en cada cirugía. Discusión: Los abordajes externos han sido clásicamente el tipo de abordaje quirúrgico más utilizado. Presentan ventajas importantes como ser el único tipo de abordaje con el que se consigue exponer de forma completa el campo quirúrgico. Como inconvenientes destacan una gran repercusión sobre la funcionalidad de los tejidos, gran variedad de complicaciones postoperatorias y un mayor tiempo quirúrgico y tiempo de ingreso hospitalario. Los abordajes endoscópicos han tenido un gran desarrollo en los últimos años y presentan ventajas como ser cirugías menos lesivas en cuanto a la funcionalidad de los tejidos, evitar cicatrices faciales o postoperatorios más cómodo y menos dolorosos para el paciente. Pero también tienen inconvenientes como una falta de espacio o alcance quirúrgico de la técnica y una aplicación limitada, que depende tanto del tamaño y el tipo del tumor que presenta el paciente. Conclusiones: Aunque tradicionalmente el abordaje quirúrgico más utilizado ha sido el abordaje externo, en las últimas décadas y de manera especialmente llamativa y relevante en los últimos años, la cirugía endoscópica ha supuesto un revulsivo a la hora de realizar cirugías en esta localización. Tanto el abordaje endoscópico endonasal como el transoral, bien con la utilización de tecnología robótica o sin ella, han permitido intervenir lesiones parafaríngeas con menores repercusiones funcionales, un postoperatorio más cómodo y menos doloroso, e ingresos menos prolongados que con las técnicas tradicionales.

PALABRAS CLAVE: Abordaje; endoscópico; externo; espacio; parafaríngeo; revisión.

SUMMARY: Introduction and objective: The parapharyngeal space is a deep craniocervical space where primary tumors are exceptional, constituting only 0.5% of all head and neck neoplasms. Benign lesions represent 70-80%, with pleomorphic adenoma being the most frequent tumor in this location. The treatment of choice at present continues to be complete surgical resection of the lesion. Although classically the most commonly used surgical approach has been the external approach, nowadays, with the appearance of endoscopic techniques, new methods of approach useful for the resection of parapharyngeal tumors have been described. Methods: We present a systematic review of external, endonasal and transoral surgical approaches to the parapharyngeal space, with a total of 1725 patients and 92 (sides) of cadavers where the type of approach used/studied in each surgery was analyzed, comparing both the advantages and disadvantages offered by each of them. Results: The systematic review has a total of 40 articles, 1654 patients and 92 (sides) of cadavers where the type of approach used/studied in each surgery was analyzed. Discussion: External approaches have classically been the most used type of surgical approach. They present important advantages such as being the only type of approach with which the surgical field is completely exposed. The drawbacks include a great impact on the functionality of the tissues, a wide variety of postoperative complications and a longer surgical time and hospital admission time. Endoscopic approaches have had great development in recent years and present advantages such as being less damaging surgeries in terms of tissue functionality, avoiding facial scars or more comfortable and less painful post-operative treatments for the patient. But they also have drawbacks such as a lack of space or surgical scope of the technique and a limited application, which depends on both the size and type of tumor that the patient has. Conclusions: Although traditionally the most commonly used surgical approach has been the external approach, in recent decades and especially strikingly and relevantly in recent years, endoscopic surgery has been a revulsive when performing surgeries in this location. Both endonasal and transoral endoscopic approaches, with or without the use of robotic technology, have made it possible to operate on parapharyngeal lesions with less functional repercussions, a more comfortable and less painful postoperative period, and less prolonged hospitalization than with traditional techniques.

KEYWORDS: Approach; endoscopic; external; parapharyngeal; space; revision; parapharyngeal; approach.

INTRODUCCIÓN

El espacio parafaríngeo es un espacio profundo de la cabeza y el cuello, con unos límites anatómicos ampliamente definidos, localizado entre la musculatura pterigoidea y la pared lateral faríngea. Clásicamente, y con el fin de poder comprender de forma más esquemática la estructura y los límites anatómicos de este espacio, se describe como una pirámide invertida, cuyos márgenes son el ápex de esta pirámide se localiza en el hasta mayor del hueso hioides, la base del cráneo se describe como la base o límite inferior de esta estructura, el músculo constrictor superior de la faringe y los músculos tensor y elevador del velo del paladar constituyen el margen interno de esta región, el músculo pterigoideo medial, la rama mandibular y el lóbulo profundo de la glándula parótida suponen el límite lateral, el rafe pterigomandibular y la fascia interpterigoidea dan lugar al margen anterior de la pirámide invertida y por último, la fascia prevertebral y los músculos prevertebrales forman el límite posterior [1]. Una característica que destacar es que el espacio parafaríngeo está subdividido por el músculo tensor del paladar, su fascia y la apófisis estiloides en dos compartimentos de menor tamaño, los espacios parafaríngeos preestíleo y retroestíleo. El compartimento preestíleo contiene gran cantidad y variedad de estructuras anatómicas que comprenden músculos (el músculo estilogloso, el músculo estilo-faríngeo), estructuras vasculo-nerviosas (la arteria maxilar interna, la arteria palatina ascendente y la división posterior del nervio mandibular), glándulas (parte del lóbulo profundo de la glándula parótida) y otros tejidos (principalmente tejido adiposo y nódulos linfáticos) [1]. El compartimento retroestíleo contiene fundamentalmente estructuras vasculo-nerviosas, de espacial relevancia quirúrgica, (la vena yugular interna, los nervios craneales inferiores IX, X, XI y XII, la cadena simpática cervical y la arteria carótida interna) además de ganglios linfáticos y otros tejidos [1-40].

Los tumores primarios del espacio parafaríngeo son excepcionales, constituyendo únicamente un 0,5% de todos los tumores de la cabeza y el cuello.

El 70-80% de estos tumores son lesiones benignas que suelen aparecer característicamente en adultos, entre los 30 y los 50 años. Los pacientes en este rango de edad representan aproximadamente el 50 % de los casos, siendo la incidencia femenina superior a la masculina según se describe en la literatura [2]. Su aparición en la infancia, por el contrario, es muy infrecuente, por lo que el diagnóstico de estos tumores en edades tempranas es especialmente llamativo.

En esta localización se ha descrito una amplia variedad histológica en cuanto a tumores se refiere. En la división anterolateral o preestílea la mayoría de las neoformaciones son neoplasias con origen en las glándulas salivales (40-50%). En la región postero-medial o retroestílea, sin embargo, las lesiones más frecuentemente descritas son las neurogénicas (20%) [3].

El tumor benigno más frecuente del espacio parafaríngeo, en general, es el adenoma pleomorfo, seguido del paraganglioma. Las neoplasias malignas más comunes también tienen como origen las glándulas salivales [3].

Las pruebas de imagen son uno de los métodos diagnósticos fundamentales para la evaluación de los tumores del espacio parafaríngeo. La resonancia magnética (RM) y la tomografía computarizada (TC) con contraste, son las técnicas más utilizadas y generalizadas para el diagnóstico de estas neoplasias. La angiografía con contraste, que se utiliza únicamente en casos seleccionados, puede ser también útil como método diagnóstico en caso de sospecha de neoformaciones vasculares.

La técnica de imagen más extendida para obtener información sobre la localización, la extensión y el tipo de tumor, así como para evaluar las posibles características malignas del tumor y su relación con las estructuras adyacentes es la RM. Las imágenes juegan un papel esencial también en la planificación prequirúrgica [3].

La citología por aspiración con aguja fina (PAAF) es la prueba recomendada para orientar el diagnóstico de los tumores del espacio parafaríngeo. Puede realizarse por vía transcervical o intraoral y es fundamental que sea evitada ante sospecha de tumores vasculares[3]. La utilización de esta técnica, junto a las pruebas de imagen, permitirá establecer el diagnóstico correcto, además de orientar el posible tratamiento de estas patologías.

La clínica de estos tumores es variada, por lo que no hay una sintomatología característica. Los síntomas generalmente están relacionados con la posición del tumor y el tamaño del mismo.

Pueden incluir masas cervicales (aproximadamente presentes en un 50 % de los pacientes), medialización de la pared lateral de la orofaringe en la exploración física, sensación de cuerpo extraño faríngeo, disfagia o disfonía. Rara vez se observan déficits neurológicos en los pares craneales o hipoacusia[4].

Al depender los síntomas de forma importante del tamaño tumoral, no es excepcional que estas neoplasias pasen desapercibidas durante largos periodos de tiempo o puedan detectarse como una masa incidental durante el estudio de otra patología [4]. Se describe en la literatura que únicamente las lesiones superiores a 2.5-3 cm llegan a ser sintomáticas [3]. por lo que tumores menores a este tamaño pueden llegar a no ser diagnosticados ni tratados, al no producir sintomatología en el paciente.

La resección quirúrgica es actualmente la opción terapéutica más ventajosa en el tratamiento de los tumores del espacio parafaríngeo. Es fundamental una correcta elección del tipo de abordaje quirúrgico para evitar al máximo posible lesiones neurovasculares y trastornos funcionales en el paciente [2-40].

MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una revisión sistemática según el protocolo PRISMA a través de la búsqueda de artículos científicos en 3 bases de datos: PUBMED, Cochrane y EMBASE.

Se realizó una primera búsqueda en la plataforma PUBMED con la palabra *parapharyngeal* o parafaríngeo con el fin de obtener todos los artículos que describieran los elementos relacionados con esta palabra (anatomía, abscesos, tumores, abordajes, cirugías). Posteriormente para ser más específicos en la búsqueda añadimos la palabra *space* o espacio, el prefijo *surg-* para así localizar todos los artículos relacionados con la cirugía o cirujanos, y la palabra “*approach*” o “*abordaje*” encontrando todos los artículos relacionados con los abordajes quirúrgicos de la localización a estudio.

Se utilizó el filtro de artículos publicados en los últimos 10 años. Al ser un tema en constante progresión, se ha considerado que los últimos 10 años son los más representativos para realizar un correcto análisis sobre los abordajes que se utilizan en la actualidad (debido a la rápida y constante evolución tanto del material utilizado, como de las técnicas de imagen y la experiencia de los cirujanos que realizan este tipo de abordaje).

RESULTADOS

Tras leer el título de los 200 artículos obtenidos, se seleccionó un total de 142 artículos.

Se descartaron los otros 58 artículos teniendo en cuenta la ausencia de palabras clave como abordaje endoscópico nasal, transoral o externo, los títulos que describían un único caso clínico o los que estaban en idiomas diferentes al español, inglés o francés. Se descartaron los artículos que hablaban únicamente de patología del espacio parafaríngeo, pero no del tratamiento quirúrgico de la misma (se descartaron todos los artículos relacionados con los abscesos parafaríngeos donde el tratamiento utilizado fue el médico). Se decidió incluir los artículos relacionados con la cirugía robótica debido a que se utiliza un abordaje transoral para la realización de esta.

Se analizó el Resumen de estos 142 artículos restantes, y tras una lectura exhaustiva del texto completo de estas publicaciones, fueron solamente

40 los artículos relacionados con el tema a estudio seleccionados para formar parte de la revisión. Se descartaron los estudios con menos de 10 pacientes o aquellos que no estudiaban el abordaje nasal endoscópico, transoral o externo. Se excluyeron los artículos con resúmenes escritos en idiomas diferentes al inglés, español o francés.

Tras realizar esta búsqueda en PUBMED se utilizaron otras dos bases de datos para proseguir la revisión sistemática. El resultado de número de artículos en estas bases de datos fue significativamente menor que los encontrados en PUBMED. En este caso también se utilizaron las palabras *parapharyngeal space surg- approach* y se localizaron los artículos publicados en los últimos 10 años.

Se realizó una búsqueda en Cochrane Library con las palabras *parapharyngeal space surg-approach* con un resultado, tras utilizar el filtro de publicaciones de los últimos 10 años, de 130 artículos relacionados. Tras analizar los títulos, resúmenes y textos completos, se descartaron los estudios con menos de 10 pacientes o aquellos que no estudiaban el abordaje nasal endoscópico, transoral o externo. Se excluyeron los artículos escritos en idiomas diferentes al inglés o español. Se obtuvo un total de 33 artículos susceptibles de ser seleccionados para la revisión sistemática, siendo todos descartados, al objetivar ser duplicados, comparando con los seleccionados en PUBMED.

El mismo proceso se llevó a cabo en la base de datos de EMBASE con 158 artículos susceptibles de ser seleccionados, finalmente descartados por motivos de exclusión o duplicados.

Finalmente, únicamente 40 artículos cumplieron los criterios para formar parte de la revisión sistemática (Figura 1, Tabla 1, Anexo 1).

La revisión sistemática cuenta con un total de 40 artículos, 1654 pacientes y 92 (lados) de cadáveres donde se analizó el tipo de abordaje utilizado/ estudiado en cada cirugía.

Se utilizó un abordaje externo en un total de 1098 pacientes y 46 lados en cadáveres.

Se utilizó el abordaje endonasal en un total de 72 pacientes y 56 lados en cadáveres.

Se utilizó el abordaje transoral en un total de 345 pacientes y 32 lados de cadáveres.

Se utilizó otro tipo de abordaje (combinados, infratemporales...) en un total de 138 pacientes y 30 lados en cadáveres.

Por lo tanto, analizando esta revisión sistemática el abordaje más utilizado fue el abordaje externo, seguido del transoral. Especialmente relevante es también el hecho de que en los últimos años un mayor número de publicaciones describe abordajes endoscópicos, en comparación con las publicaciones de principios de la década de 2010.

DISCUSIÓN

El tratamiento de elección de los tumores del espacio parafaríngeo es actualmente la resección quirúrgica completa de los mismos. A lo largo de los años se han descrito diferentes abordajes quirúrgicos, desde abordajes externos hasta abordajes endoscópicos, bien nasales o transorales. Debido a que es un espacio profundo, de difícil acceso, con una amplia variedad histológica tumoral y compleja anatomía, es fundamental una correcta elección de la técnica quirúrgica, teniendo en cuenta la gran repercusión que puede tener el tipo de abordaje sobre las estructuras neuro-vasculares o la funcionalidad de los tejidos del paciente.

ABORDAJES EXTERNOS

Los abordajes externos han sido clásicamente el tipo de abordaje quirúrgico más utilizado para la resección de neoformaciones parafaríngeas. Son, por lo tanto, los más descritos en la literatura. Existen gran cantidad y variaciones de abordajes externos (transcervicales, transparotídeos, combinados...), atendiendo al lugar de incisión, las estructuras afectadas, las estructuras reseçadas... Se realiza, a continuación, una generalización de las mismas, describiendo características comunes en todas ellas, para lograr una correcta comparación de éstas con las técnicas endoscópicas.

Ventajas. El abordaje externo es el único con el que se consigue exponer de forma completa el

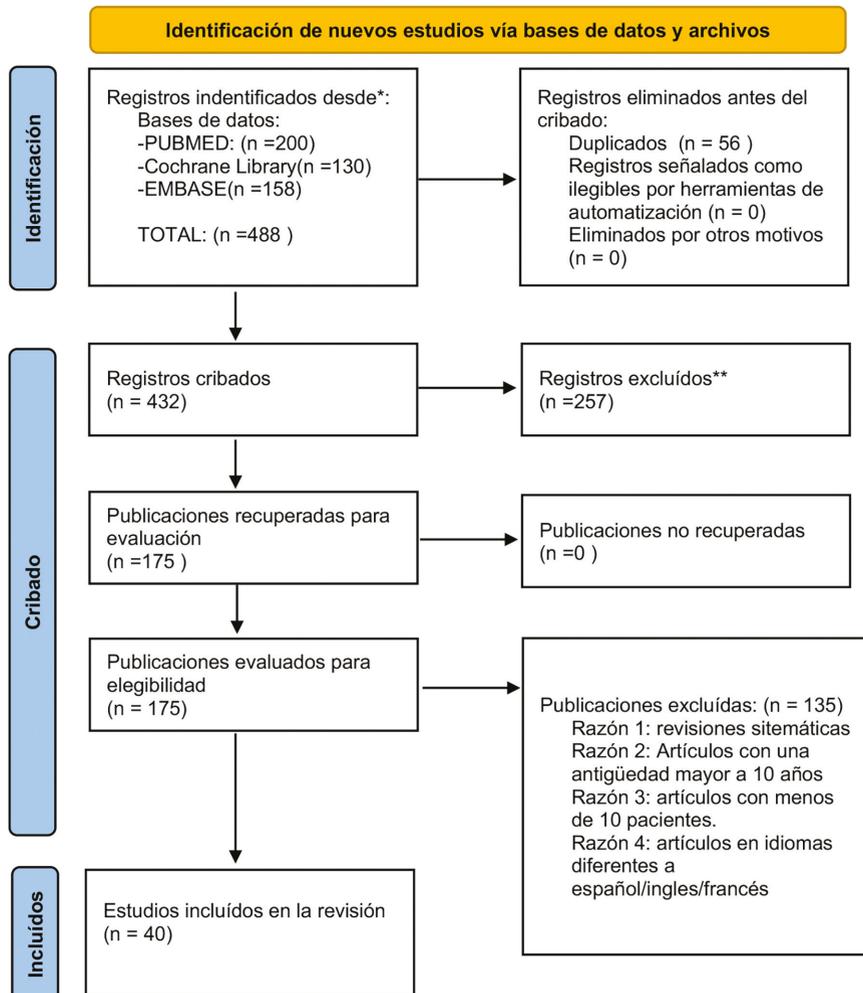


Figura 1. Diagrama de flujo. Selección de artículos mediante método PRISMA para revisión sistemática.

campo quirúrgico, por lo tanto, una mejor visión de las estructuras vasculares y neurológicas y consecuentemente un adecuado control de las mismas durante la cirugía.

Inconvenientes. Es un tipo de cirugía con una gran repercusión sobre la funcionalidad de los tejidos. Requiere en algunas ocasiones la exéresis de glándulas (principalmente submandibular o parótida) o la amputación de partes de la mandíbula,

sobreañadiendo gran cantidad de complicaciones postoperatorias, tiempo quirúrgico y tiempo de ingreso hospitalario [1]. El postoperatorio es más incómodo y doloroso para el paciente que las opciones endoscópicas [2]. Las cicatrices faciales y cervicales que se producen tras este tipo de cirugías son una incomodidad estética habitual para algunos pacientes, y es otro de los matices a tener en cuenta a la hora de realizar esta intervención [2].

Cuando hacemos referencia a los abordajes externos, los abordajes transcervicales suelen indicarse en tumores del compartimento preestíleo, mientras que suele requerirse un abordaje combinado transparotideo- transcervical para los tumores del compartimento retroestíleo o para aquellos tumores originados en el lóbulo profundo de la glándula parótida.

Solía estar indicada la mandibulotomía combinada con estos abordajes, únicamente en la extirpación de tumores malignos, tumores de origen vascular y tumores recidivantes, debido a la importante repercusión sobre el suelo de la boca y la consecuente necesidad de traqueotomía y alimentación por sonda nasogástrica tras la cirugía en estos casos [4].

ABORDAJES ENDOSCÓPICOS

En las últimas décadas, y específicamente en los últimos años, ha habido una completa revolución en el abordaje de los tumores de este espacio con la aparición de técnicas endoscópicas, tanto endonasaes como transorales, que facilitan la preservación de la funcionalidad de las estructuras anatómicas subyacentes al tumor y, por tanto, la calidad de vida del paciente en los casos en los que estas técnicas son satisfactorias. Como todo tipo de abordaje quirúrgico presentan ventajas y desventajas que se analizarán a continuación.

ABORDAJE ENDONASAL

Ventajas. Se considera un tipo de cirugía menos lesiva en cuanto a la funcional de las estructuras subyacentes al tumor que los abordajes externos. En este caso no se objetivan cicatrices a nivel facial [2]. El abordaje transnasal puede proporcionar una vía directa al espacio parafaríngeo superior [1-14]. El postoperatorio es más cómodo y menos doloroso para el paciente que las opciones externas [2-34]. Ingresos menos prolongados.

Inconvenientes. Por falta de espacio o alcance quirúrgico de la técnica, en algunas ocasiones no

se llega a observar con claridad los límites tumorales, con la consecuente falta de visibilidad a la hora de disecar con claridad el tumor y sus tejidos subyacentes. Aplicación limitada, que depende tanto del tamaño y el tipo del tumor, como de la experiencia del cirujano, que serán factores fundamentales para que la cirugía resulte exitosa y se consiga eliminar por completo la neoformación. Tradicionalmente se ha considerado adecuado únicamente en tumores de pequeño tamaño, cercanos a la cavidad faríngea, sin encontrarse guías o recomendaciones específicas al realizar esta revisión bibliográfica que especifiquen los tipos de tumores que deberían intervenir con esta técnica [2-40]. El abordaje endonasal presenta una exposición lateral e inferior bastante limitadas. En ocasiones es necesaria la resección de la trompa de Eustaquio o de los músculos pterigoideos (con su consecuente disfunción masticatoria) cuando se necesita una exposición quirúrgica ampliada, por ejemplo una correcta exposición de la ACI parafaríngea superior [1].

ABORDAJE TRANSORAL

Por último, uno de los abordajes más utilizados o documentados en la actualidad es el abordaje transoral.

Ventajas. Se puede utilizar la cirugía robótica, (TORS), en este abordaje, que se caracteriza por ser una técnica a tres manos, fina y con buen control de las estructuras anatómicas [5-40]. Consigue aportar una ruta directa a la porción lateral inferior del espacio parafaríngeo, sin la necesidad de disecar los músculos pterigoideos. En comparación con el abordaje transnasal, el abordaje transoral aporta un abordaje más corto y amplio hasta el espacio parafaríngeo y puede facilitar la exposición de la ACI (arteria carótida interna) parafaríngea [1-30]. Evita la amputación mandibular y reduce las lesiones neurovasculares de forma significativa en relación al abordaje externo. Evita también las cicatrices faciales. El postoperatorio es más cómodo y menos doloroso

para el paciente que las opciones externas [2]. Ingresos menos prolongados.

Inconvenientes. Limitada visibilidad a la hora de diferenciar los límites tumorales, al igual que en la endoscopia endonasal. Si se produce una lesión carotídea durante la cirugía con este tipo de abordaje se obtendría un menor control de la ACI proximal que el control que se llegaría a obtener con un abordaje transcervical. Sin embargo, el riesgo parece ser similar en ambos tipos de abordaje cuando la lesión tiene lugar en una región anatómicamente más cercana a la base del cráneo [1]. Debe destacarse también la posibilidad de derrame tumoral con este tipo de técnica, especialmente durante la extirpación del adenoma pleomorfo. La mayoría de los tumores del espacio retroestiloideo son schwannomas, por lo que no suele ser una complicación común en este tipo de intervención, pero está ampliamente descrita en la literatura como una de las principales desventajas de este tipo de cirugía [5].

ABORDAJES COMBINADOS

Es fundamental tener en cuenta la importancia y posible utilidad de los abordajes combinados (endoscópico-externo, endoscópico-endoscópico) a la hora de planificar cirugías.

La combinación de abordajes endoscópicos transorales - abordajes endoscópicos transnasales ha demostrado ser útil a la hora de superar inconvenientes usuales en abordajes únicamente endonasales. Se pueden utilizar para exponer óptimamente estructuras del paladar duro que no se consigue observar de forma clara en abordajes por la nariz.

La combinación de abordajes endoscópicos permite también la participación de dos cirujanos simultáneamente, además de un mayor espacio quirúrgico con la consecuente mayor facilidad para la movilidad del instrumental. La utilidad de estos abordajes tiene especial relevancia cuando es necesario controlar el segmento parafaríngeo de la ACI durante la cirugía transnasal endoscópica. Los casos deben ser seleccionados con cautela,

conociendo bien los límites anatómicos que se consiguen con cada abordaje [1-40].

Las técnicas endoscópicas y externas son también técnicas complementarias y no excluyentes. Ante neoplasias con localizaciones cercanas a la arteria carótida o en espacios especialmente profundos, puede ser necesario una combinación de técnicas externas-endoscópicas para un mejor control de estructuras vasculares y delimitación de tejido tumoral.

CONCLUSIONES

La exéresis quirúrgica completa sigue siendo en la actualidad el tratamiento óptimo de los tumores del espacio parafaríngeo.

Aunque tradicionalmente el abordaje quirúrgico más utilizado ha sido el abordaje externo, en las últimas décadas y de manera especialmente llamativa y relevante en los últimos años, la cirugía endoscópica ha supuesto un revulsivo a la hora de realizar cirugías en esta localización.

Tanto el abordaje endoscópico endonasal como el transoral, bien con la utilización de tecnología robótica o sin ella, han permitido intervenir lesiones parafaríngeas con menores repercusiones sobre la funcionalidad de las estructuras subyacentes, han aportado un postoperatorio más cómodo y menos doloroso para el paciente, e ingresos menos prolongados que con las técnicas tradicionales. A pesar de todo esto, los abordajes externos siguen siendo necesarios en algunas ocasiones.

Los abordajes combinados (bien endoscópico-endoscópico como endoscópico-externo) son una opción que debe tenerse en cuenta a la hora de planificar las cirugías, por su utilidad a la hora de ampliar los límites del campo quirúrgico, la posibilidad de participación de dos cirujanos simultáneamente, y la comodidad de instrumentación y movilidad en el campo.

Aunque hay una amplia variedad de artículos relacionados con este tipo de abordajes publicados en los últimos años, no existen en la actualidad

herramientas, guías o protocolos que ayuden a establecer el tipo de abordaje más recomendado en cada tipo de paciente y según la localización del tumor. Es necesario conocer, tanto la histología de la lesión a tratar, como la anatomía del paciente mediante estudios de imagen, para determinar el tipo de abordaje óptimo en cada cirugía, atendiendo a las características de los mismos.

Cada caso y cada paciente debe ser analizado de forma individual para poder elegir el abordaje y material óptimo en cada cirugía. Creemos fundamental la creación de herramientas que faciliten al cirujano la elección del tipo de abordaje, teniendo en cuenta que en la actualidad el principal método de elección se basa en la experiencia previa de cada cirujano.

BIBLIOGRAFÍA

1. Sun X, Yan B, Truong H, Borghei-Razavi H, Snyderman C, Fernandez-Miranda J. A Comparative Analysis of Endoscopic-Assisted Transoral and Transnasal Approaches to Parapharyngeal Space: A Cadaveric Study. *J Neurol Surg B Skull Base*. 2017;79(03):229–40.
2. Guo D, Sun C, Yin X, Qu H, Dai B, Hu L, Zhou C, Du X. A Retrospective Analysis on the Effects and Complications of Endoscope-Assisted Transoral Approach and Lateral Cervical Approach in the Resection of Parapharyngeal Space Tumors. *Comput Intel Neurosci*. 2022;7536330. <https://doi.org/10.1155/2022/7536330>
3. Pradeep Pradhan P, Preetam C, Kumar-Parida P, Samal S, Kumar-Samal D. Surgical Management of Parapharyngeal Space Tumours in a Single Tertiary Care Center. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2018;70(4):531–537.
4. Basaran B, Polat B, Unsaler S, Ulsan M, Aslan I, Hafiz G. Parapharyngeal space tumours: the efficiency of a transcervical approach without mandibulotomy through review of 44 cases. *Acta Otorhinolaryngol. Ital*. 2014;34:310-316.
5. Li L, London NR Jr, Gao Y, Carrau RL, Chen X. Endoscopic transoral approach for resection of retrostyloid parapharyngeal space tumors: Retrospective analysis of 16 patients. *Head Neck*. 2020;42(12):3531-3537.
6. Duek I, Sviri G, Billan S, Gil Z. Minimally Invasive Surgery for Resection of Parapharyngeal Space Tumors. *J Neurol Surg B Skull Base*. 2017;79(03):250–256.
7. Eguiluz-Melendez A, Torres-Bayona S, Vega MB, Hernández-Hernández V, Wang EW, Snyderman CH, et al. Keyhole Endoscopic-Assisted Transcervical Approach to the Upper and Middle Retrostyloid Parapharyngeal Space: An Anatomic Feasibility Study. *J Neurol Surg B Skull Base*. 2021;83(2):126–134.
8. Chen Z, Chen Y-L, Yu Q, Zhou S-H, Bao Y-Y, Ruan L-X. Excision of tumors in the parapharyngeal space using an endoscopically assisted transoral approach: a case series and literature review. *Int. J. Med. Res*. 2019;47(3):1103–1113.
9. Pilolli F, Giordano I, Galli A, Bussi M. Parapharyngeal space tumours: video-assisted minimally invasive transcervical approach. *Acta Otorhinolaryngol. Ital*. 2016;36:259-264.
10. Luna-Ortiz K, Villa-Zepeda O, Carrillo JF, Molina-Frias E, Gómez-Pedraza A. Parapharyngeal Space Tumor: Submandibular Approach Without Mandibulotomy. *J. Maxillofac Oral Surg*. 2018;17(4):616–624.
11. Fang Y, Wu H, Tan AD, Cheng L. Transcervical endoscopic approach for parapharyngeal space: a cadaver study and clinical practice. *Acta Otolaryngol*. 2020;140(2):163-169.
12. Li L, London NR Jr, Prevedello DM, Carrau RL. Endonasal endoscopic transpterygoid approach to the upper parapharyngeal space. *Head Neck*. 2020;42(9):2734-2740.
13. Roger V, Patron V, Moreau S, Kanagalingam J, Babin E, Hitier M. Extended endonasal approach versus maxillary swing approach to the parapharyngeal space. *Head Neck*. 2018;40(6):1120-1130.
14. Liu Q, Wang H, Zhao W, Song X, Sun X, Yu H, Wang D, Fernandez-Miranda JC, Snyderman CH. Endoscopic transnasal transmaxillary approach to the upper parapharyngeal space and the skull base. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2020;277(3):801-807.

15. Luzzi S, Giotta Lucifero A, Del Maestro M, Marfia G, Navone SE, Baldoncini M, Nuñez M, Campero A, Elbabaa SK, Galzio R. Anterolateral Approach for Retrostyloid Superior Parapharyngeal Space Schwannomas Involving the Jugular Foramen Area: A 20-Year Experience. *World Neurosurg.* 2019;132:40-52.
16. Matsuki T, Okamoto I, Tada Y, Masubuchi T, Fushimi C, Kamata S, Miyamoto S, Yamashita T, Miura K. Resection of Parapharyngeal Space Tumors Located in the Prestyloid Compartment: Efficacy of the Cervical Approach. *Ann Surg Oncol.* 2021;28(6):3066-3072.
17. Shin BJ, Lee DH, Lee JK, Lim SC. Surgical Treatment of Parapharyngeal Space Salivary Gland Tumor. *J Craniofac Surg.* 2022;33(7):676-679.
18. Tao L, Shi XL, Li XM, Wu HT, Chen XL, Li C, Shen Y, Wei CS, Wang DH, Zhou L. Retrospective analysis of 188 cases of parapharyngeal space tumors. *Lin Chung Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi.* 2018;32(2):129-133.
19. Chu F, Tagliabue M, Giugliano G, Calabrese L, Preda L, Ansarin M. From transmandibular to transoral robotic approach for parapharyngeal space tumors. *Am J Otolaryngol.* 2017;38(4):375-379.
20. Cassoni A, Terenzi V, Della Monaca M, Bartoli D, Battisti A, Rajabtorik Zadeh O, Valentini V. Parapharyngeal space benign tumours: our experience. *J Craniomaxillofac Surg.* 2014;42(2):101-105.
21. Boyce BJ, Curry JM, Luginbuhl A, Cognetti DM. Transoral robotic approach to parapharyngeal space tumors: Case series and technical limitations. *Laryngoscope.* 2016;126(8):1776-1782.
22. Ferrari M, Schreiber A, Mattavelli D, Lombardi D, Rampinelli V, Doglietto F, Rodella LF, Nicolai P. Surgical anatomy of the parapharyngeal space: Multiperspective, quantification-based study. *Head Neck.* 2019;41(3):642-656.
23. Park YM, De Virgilio A, Kim WS, Chung HP, Kim SH. Parapharyngeal space surgery via a transoral approach using a robotic surgical system: transoral robotic surgery. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2013;23(3):231-236.
24. Dallan I, Fiacchini G, Turri-Zanoni M, Seccia V, Battaglia P, Casani AP, Cristofani-Mencacci L, Sellari-Franceschini S. Endoscopic-assisted transoral-transpharyngeal approach to parapharyngeal space and infratemporal fossa: focus on feasibility and lessons learned. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2016;273(11):3965-3972.
25. Lao WP, Han PS, Lee NH, Gilde JE, Inman JC. Transoral Excision of Parapharyngeal Tumors. *Ear Nose Throat J.* 2021;100(10):454-458.
26. He L, Xie J, Gao X. Endoscope-assisted transoral resection of parapharyngeal space tumors: a retrospective study. *Lin Chung Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi.* 2020;34(9):824-827.
27. Shi X, Tao L, Li X, Wu H, Huang W, Chen X, Li C, Shen Y, Chen Q, Tang D, Wei C, Wang D, Zhou L. Surgical management of primary parapharyngeal space tumors: a 10-year review. *Acta Otolaryngol.* 2017;137(6):656-661.
28. Rzepakowska A, Osuch-Wójcikiewicz E, Krupa Z, Durmaj A, Niemczyk K. Surgical treatment results of parapharyngeal space tumors: a report of 22 cases. *Otolaryngol Pol.* 2018;72(4):9-16.
29. Sato H, Nonaka Y, Bawornvaraporn U, Fukushima T. Preauricular retromandibular trans tympanic plate and styloid process keyhole approach to parapharyngeal lesions: a laboratory study. *Acta Neurochir.* 2020;162(3):661-669.
30. Wang X, Gong S, Lu Y, Pan X, Luo X, Sun H. Endoscopy-assisted transoral resection of parapharyngeal space tumors: a retrospective analysis. *Cell Biochem Biophys.* 2015;71(2):1157-1163.
31. Gadre PK, Gadre KS, Halli RC, Kukarni A, Bhosale G. Mandibular subsigmoid access osteotomy in the management of parapharyngeal space tumors. *J Craniofac Surg.* 2013;24(2):579-582.
32. Battaglia P, Turri-Zanoni M, Dallan I, Gallo S, Sica E, Padoan G, Castelnuovo P. Endoscopic endonasal transpterygoid transmaxillary approach to the infratemporal and upper parapharyngeal tumors. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2014;150(4):696-702.
33. Liu Y, Yu HJ, Zhen HT. Transoral and endoscope-assisted transoral approaches to

- resecting benign tumours of the parapharyngeal space located in the medial portion of the carotid sheaths and extending toward the skull base: our experience. *J Laryngol Otol.* 2018;132(8):748-752.
34. Fan S, Lin SG, Zhang HQ, Li QX, Chen WX, Wang YY, Zhang DM, Lin ZY, Zhong JL, Chen WL, Li JS. A comparative study of the endoscopy-assisted transoral approach versus external approaches for the resection of large benign parapharyngeal space tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2017;123(2):157-162.
 35. Chu F, De Berardinis R, Tagliabue M, Zorzi S, Bandi F, Ansarin M. The Role of Transoral Robotic Surgery for Parapharyngeal Space: Experience of a Tertiary Center. *J Craniofac Surg.* 2020;31(1):117-120.
 36. Chen H, Sun G, Tang E, Hu Q. Surgical Treatment of Primary Parapharyngeal Space Tumors: A Single-Institution Review of 28 Cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 2019;77(7):1520.e1-1520.e16.
 37. Zhu X, Shi X, Zhou L, Zhang M, Cheng L, Shi Y, Xu C, Wu C, Liu Q, Cao P, Tao L. Trends in the surgical management of parapharyngeal space tumors: A single-center retrospective analysis. *Eur J Surg Oncol.* 2022;22.
 38. Salzano G, Togo G, Maglitter F, Borriello G, Perri F, Audino G, Vaira LA, Maglione MG, Petrocelli M, Califano L, Ionna F. Trans-Oral Robotic Surgery: 14 Cases of Pleomorphic Adenoma of the Parapharyngeal Space. *J Craniofac Surg.* 2022;33(5):1587-1590.
 39. Chen HL, Sun GW, Tang EY, Hu QG. Clinical analysis and surgical treatment evaluation of 23 cases with primary parapharyngeal space tumors. *Zhonghua Kou Qiang Yi Xue Za Zhi.* 2019;54(2):107-111.
 40. Lim JY, Park YM, Kang MS, Kim DH, Choi EC, Kim SH, Koh YW. Comparison of Surgical Outcomes of Robotic and Conventional Approaches in Patients with Pre- and Poststyloid Parapharyngeal Space Tumors. *Ann Surg Oncol.* 2020;27(11):4535-4543.

ABORDAJES QUIRÚRGICOS DEL ESPACIO PARAFARÍNGEO. COMPARACIÓN DE ABORDAJES EXTERNOS Y ENDOSCÓPICOS. REVISIÓN SISTEMÁTICA

LOSADA-CAMPA J, TORRES-MORIENTES LM, PASTOR-VÁZQUEZ JF ET AL.

ANEXO 1

Tabla 1. Artículos seleccionados para revisión sistemática. Número de casos que se aportan en cada artículo. Número de abordajes por tipo que se describen en cada artículo.

Referencia	N	Endonasal	Transoral	Externo	Otros
Gadre et al. 2013 [31]	18			18	
Park et al. 2013 [23]	11		11		
Battaglia et al. 2014 [32]	37	37			
Cassoni et al. 2014 [20]	60			60	
Barasan et al. 2014 [4]	44			44	
Wang et al. 2015 [30]	20		10	10	
Dallan et al. 2016 [24]	10		10		
Boyce et al. 2016 [21]	17		17		
Pilolli et al. 2016 [9]	10			10	
Fan et al. 2017 [34]	44		19	25	
Shi et al. 2017 [27]	167			167	
Chu et al. 2017 [19]	53		8	45	
Sun X et al. 2017 [1]	12 (lados)	12 lados	12 lados		
Liu et al. 2018 [33]	32		32		
Rzepakowska et al. 2018 [28]	22		2	20	
Tao et al. 2018 [18]	188	9	7	167	4
Roger et al. 2018 [13]	10	10			
Luna-Ortiz et al. 2018 [10]	14			14	
Pradhan et al. 2018 [3]	14			10	4
Duek et al. 2018 [6]	11			11	
Chen et al. 2019 [39]	23		2	15	6
Chen et al. 2019 [36]	28		5	23	
Ferrari et al. 2019 [22]	20 lados	20 lados	20 lados	20 lados	20 lados
Luzzi et al. 2019 [15]	38				38
Chen et al. 2019 [8]	12		12		
Lim et al. 2020 [40]	136		53	83	
Chu et al. 2020 [35]	17		17		
Sato et al.2020 [29]	10 lados				10 lados
He et al. 2020 [26]	22		22		
Li et al. 2020 [5]	16		16		
Liu et al. 2020 [14]	12 lados	12 lados			
Li et al. 2020 [12]	12 lados	12 lados			
Fang et al. 2020 [11]	16 lados			16 lados	
Lao et al. 2021 [25]	26		26		
Matsuki et al. 2021 [16]	67			67	
Zhu et al. 2022 [37]	389	16	29	258	86
Salzano et al.2022 [38]	14		14		
Shin et al. 2022 [17]	15		1	14	
Guo et al. 2022 [2]	69		32	37	
Eguiluz-Melendez et al. 2022 [7]	10 (lados)			10 lados	

ARTÍCULO DE REVISIÓN

ENFISEMA PARAFARÍNGEO TRAS FRACTURA DE LA PORCIÓN TIMPÁNICA DEL HUESO TEMPORAL. REVISIÓN SISTEMÁTICA

Parapharyngeal emphysema after fracture of the tympanic portion of the temporal bone. A systematic review

Rocío GARCÍA-FERNÁNDEZ ; Ana María GASÓS-LAFUENTE ; María GUALLAR-LARPA ; María José LAVILLA-MARTÍN DE VALMASEDA 

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

Correspondencia: rogarfer96@gmail.com

Fecha de recepción: 18 de noviembre de 2023

Fecha de aceptación: 2 de diciembre de 2023

Fecha de publicación: 2 de marzo de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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: Realizar una revisión sistemática sobre la aparición de enfisema parafaríngeo como complicación de la fractura de la porción timpánica del hueso temporal tras traumatismo mandibular. Método: Se realiza una revisión bibliográfica sobre esta infrecuente complicación en las bases de datos electrónicas PubMed, Web of Science y Cochrane. Resultados: La búsqueda inicial ofreció un total de 31 resultados. Se seleccionan por lectura de título y resumen 8 artículos para análisis de texto completo y se descartan 6 de ellos según los criterios de inclusión y exclusión. Finalmente se incluyen en la revisión 2 artículos con casos publicados de enfisema parafaríngeo y se incorpora un nuevo artículo publicado en esta revista. Se revisan un total de 3 casos con diagnóstico de enfisema parafaríngeo secundaria a fractura de la porción timpánica del hueso temporal (2 varones y 1 mujer), con edades de entre 36 y 79 años. El hallazgo más frecuente fue la otorragia (100% de los casos), y el manejo en todos los casos fue conservador, sin reportarse complicaciones a largo plazo. Discusión: Existen una serie de factores que pueden favorecer este tipo de fracturas y, por tanto, la aparición de la complicación en forma de enfisema parafaríngeo. La otorragia, la hipoacusia, la estenosis del conducto auditivo externo o la limitación de la apertura bucal son

los hallazgos más habituales. Para su diagnóstico es importante el uso de la tomografía computarizada y su manejo suele ser conservador. Conclusiones: La alta frecuencia de traumatismos mandibulares y la poca repercusión clínica que puede tener la fractura de la porción timpánica del hueso temporal hacen pensar que exista un infradiagnóstico de este tipo de fracturas y, por tanto, de su complicación en forma de enfisema parafaríngeo.

PALABRAS CLAVE: Enfisema parafaríngeo; traumatismo mandibular; articulación temporomandibular; fractura hueso temporal.

SUMMARY: Introduction and objective: To carry out a systematic review on the appearance of parapharyngeal emphysema as a complication of the fracture of the tympanic portion of the temporal bone after mandibular trauma. Method: A bibliographic review is carried out on this rare complication in the electronic databases PubMed, Web of Science and Cochrane. Results: The initial search offered a total of 31 results. Eight articles are selected by reading the title and abstract for full-text analysis and 6 of them are discarded according to the inclusion and exclusion criteria. Finally, 2 articles with published cases of parapharyngeal emphysema are included in the review and a new article published in this journal is incorporated. A total of 3 cases with a diagnosis of parapharyngeal emphysema secondary to fracture of the tympanic portion of the temporal bone are reviewed (2 men and 1 woman), aged between 36 and 79 years. The most frequent finding was otorrhagia (100% of cases), and management in all cases was conservative, with no long-term complications reported. Discussion: There are a series of factors that can favor this type of fractures and, therefore, the appearance of the complication in the form of parapharyngeal emphysema. Otorrhagia, hearing loss, stenosis of the external auditory canal or limitation of mouth opening are the most common findings. For its diagnosis, the use of computed tomography is important and its management is usually conservative. Conclusions: The high frequency of mandibular trauma and the little clinical impact that the fracture of the tympanic portion of the temporal bone may have suggests that there is an underdiagnosis of this type of fractures and, therefore, of its complication in the form of parapharyngeal emphysema.

KEYWORDS: Parapharyngeal emphysema; mandibular trauma; temporomandibular joint; temporal bone fracture.

INTRODUCCIÓN

El conducto auditivo externo está constituido por una parte cartilaginosa (un tercio externo) y una parte ósea (dos tercios internos). Esta parte ósea está conformada por la porción timpánica, la porción escamosa y la porción mastoidea del hueso temporal. La porción timpánica constituye la pared anterior e inferior del conducto auditivo externo, conectándose con el resto del hueso temporal a través de las fisuras petrotimpánicas y timpanomastoideas. Inmediatamente anterior al conducto auditivo externo se encuentra la

articulación temporomandibular (ATM), una diartrosis compuesta por la unión del hueso temporal y el cóndilo mandibular [1].

Tan solo una delgada porción de hueso temporal separa el meato auditivo y el cóndilo mandibular. La íntima relación entre estas estructuras explica el posible mecanismo etiopatogénico de las fracturas de la porción timpánica en el contexto de traumatismos mandibulares. El desplazamiento posterior del cóndilo mandibular impacta sobre la pared anterior del conducto auditivo externo, pudiendo ocasionar la fractura de la porción timpánica del hueso temporal [2,3]. En el contexto de

traumatismos faciales, este tipo de fracturas pueden encontrarse de forma aislada o asociadas a otras fracturas (principalmente mandibulares) [4,5].

Aunque el hallazgo de fractura de la porción timpánica del hueso temporal es relativamente común en las tomografías computarizadas de alta resolución realizadas en casos de traumatismo craneoencefálico [6], su complicación en forma de enfisema parafaríngeo es muy infrecuente, habiéndose descrito casos aislados en la literatura.

El objetivo del estudio es realizar una revisión bibliográfica sobre el enfisema parafaríngeo como complicación inusual de la fractura de la porción timpánica del hueso temporal en el contexto del traumatismo mandibular, evaluando su incidencia y caracterizando su forma de presentación, diagnóstico y tratamiento.

MATERIAL Y MÉTODO

La revisión bibliográfica se ha realizado según el protocolo PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analysis*), definiéndose previamente el método de análisis y los criterios de inclusión y exclusión.

Los criterios de inclusión fueron: casos publicados con diagnóstico de enfisema parafaríngeo y fractura de la porción timpánica del hueso temporal tras traumatismo (cualquier sexo y edad); publicaciones que describan las características epidemiológicas, clínicas y terapéuticas de los casos. Por otro lado, los criterios de exclusión fueron: casos con diagnóstico de fractura de la porción timpánica del

hueso temporal sin enfisema parafaríngeo o casos con diagnóstico de enfisema parafaríngeo no secundario a fractura de la porción timpánica del hueso temporal; publicaciones con material redundante. Estos criterios se muestran en la Tabla 1.

Se realizó una búsqueda de publicaciones en las bases de datos electrónicas PubMed, Web of Science y Cochrane utilizando en los motores de búsqueda los siguientes términos combinados: *parapharyngeal emphysema*, *cervical emphysema*, *temporal bone* y *external auditory canal*. En cada base de datos electrónica se emplearon los términos mencionados en función a su motor de búsqueda.

Posteriormente se realizó la selección de artículos de forma estandarizada según los criterios de inclusión y exclusión. Tras ello, se recogieron datos de los casos incluidos para la revisión bibliográfica: datos epidemiológicos de los pacientes, clínica y tratamiento.

RESULTADOS

La búsqueda inicial ofreció un total de 31 resultados, de los que se seleccionaron 8 para análisis del texto completo. Se descartaron 4 de ellos por tratarse de casos de enfisema asociados a antecedente de cirugía otológica [7-10] y 2 de ellos por tratarse de casos de enfisema secundarios a fracturas no localizadas en la porción timpánica del hueso temporal [11,12]. El resumen de la estrategia de búsqueda y de selección de artículos se muestra en la Figura 1.

Por tanto, se incluyen dos artículos para revisión de la literatura [13,14] y se incorpora un nuevo

Tabla 1. Criterios de inclusión y de exclusión en la revisión bibliográfica.

Criterios de inclusión
1. Casos publicados con diagnóstico de enfisema parafaríngeo y fractura de la porción timpánica del hueso temporal tras traumatismo (cualquier sexo y edad).
2. Casos que describan las características epidemiológicas, clínicas y terapéuticas.
Criterios de exclusión
1. Casos publicados con diagnóstico de fractura de la porción timpánica del hueso temporal y sin enfisema parafaríngeo.
2. Casos publicados con diagnóstico de enfisema parafaríngeo no secundario a fractura de la porción timpánica del hueso temporal.
3. Publicaciones con material sin interés para el estudio.

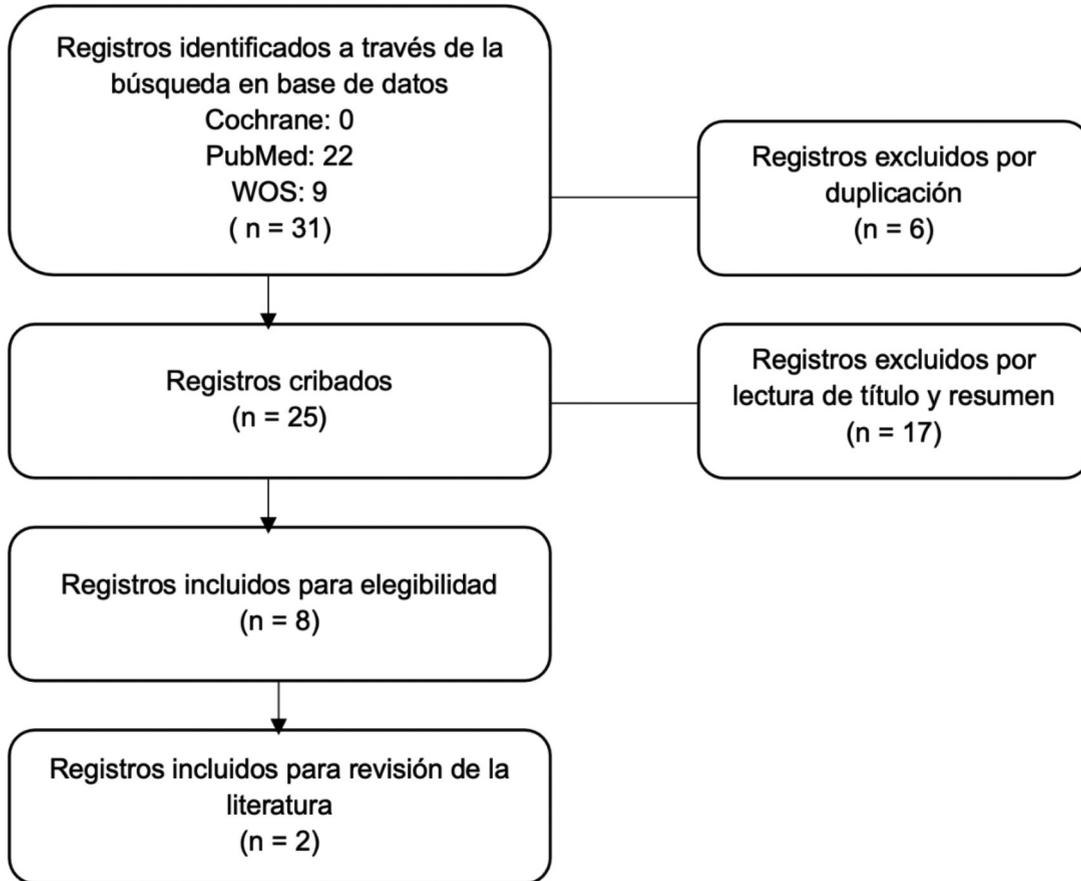


Figura 1. Diagrama de selección de artículos.

Tabla 2. Revisión de casos de enfisema parafaríngeo secundario a fractura de la porción timpánica del hueso temporal.

Autor (año)	Edad y sexo	Clínica	Tratamiento
Plaza et al. [13] (1998)	36 años Mujer	Otorragia Otagia Disfagia	Conservador
Matos et al. [14] (2013)	54 años Varón	Otorragia Otagia	Conservador
García-Fernández et al. [15] (2023)	79 años Varón	Otorragia Hipoacusia transmisiva	Conservador

artículo aportado en esta revista [15]. Se adjunta un resumen de las principales características de los casos estudiados (Tabla 2).

Los casos revisados pertenecen a la edad adulta, siendo pacientes de entre 36 y 79 años. Dos de los casos eran varones (66.66%) y uno mujer (33.33%). El mecanismo etiopatogénico descrito en todos

ellos fue un traumatismo facial por caída accidental. La otorragia fue el síntoma más frecuente, hallándose en el 100% de los casos, seguido de la otalgia (66.66%), la disfagia (33.33%) y la pérdida de audición (33.33%). En todos los casos el manejo fue conservador, sin reportarse complicaciones en ninguno de los pacientes.

DISCUSIÓN

Las fracturas de la porción timpánica del hueso temporal están producidas por traumatismos faciales (caídas, agresiones, accidentes de tráfico...) [2]. Hay una serie de factores que favorecen este tipo de fracturas: una delgada capa ósea de la porción timpánica del hueso temporal, la apertura de la boca en el momento del impacto, la dirección del impacto (traumatismos sobre el mentón) o la ausencia de las piezas dentarias posteriores [3].

Los signos clínicos que suelen acompañar a estas fracturas son la otorragia, la hipoacusia, la estenosis del conducto auditivo externo o la limitación de la apertura bucal [2], teniendo que hacer el diagnóstico diferencial entre la luxación posterior del cóndilo mandibular con la fractura de la porción timpánica del hueso temporal y la fractura de la porción petrosa del hueso temporal [3] Esta clínica está relacionada con la fractura de la porción timpánica del hueso temporal, siendo el enfisema parafaríngeo habitualmente asintomático y, en caso de presentar clínica, pueden presentar disfagia [13].

Para el diagnóstico del enfisema parafaríngeo es imprescindible el uso de la tomografía computarizada (TC). La presencia de aire en torno a la articulación temporomandibular constituye un signo indirecto y específico de la fractura del hueso temporal [16,17].

El tratamiento del enfisema parafaríngeo asociado a fracturas aisladas de la porción timpánica del hueso temporal suele ser conservador, requiriendo controles posteriores para evitar la aparición de complicaciones a largo plazo (estenosis del conducto auditivo externo y la pérdida de audición) [2,18].

CONCLUSIONES

La alta frecuencia de los traumatismos mandibulares y la escasa repercusión clínica que puede tener la fractura de la porción timpánica del hueso temporal podría hacer pensar que existiera un infradiagnóstico de este tipo de fracturas y, por

tanto, de su complicación en forma de enfisema parafaríngeo.

El mecanismo del trauma, la anamnesis y la exploración son importantes para tener una sospecha de posibles complicaciones, siendo el uso de las pruebas de imagen imprescindible para su diagnóstico y posterior seguimiento, evitando así secuelas a largo plazo.

BIBLIOGRAFÍA

1. Benson JC, Lane JI. Temporal Bone Anatomy. *Neuroimaging Clin N Am.* 2022; 32(4):763-775.
2. Burchhardt D, David J, Eckert R, Robinette N, Carron M, Zuliani G. Trauma patterns, symptoms, and complications associated with external auditory canal fractures. *Laryngoscope.* 2015; 125(7):1579-1582.
3. Gomes MB, Guimarães SM, Filho RG, Neves AC. Traumatic fractures of the tympanic plate: a literature review and case report. *Cranio.* 2007; 25(2):134-137.
4. Jiang Y, Jiang C, Huang X. Associations between condylar fractures and external auditory canal fracture: A 7-year retrospective study. *J Cranio-maxillofac Surg.* 2022; 50(2):140-145.
5. Altay C, Erdoğan N, Batkı O. Isolated tympanic plate fracture frequency and its relationship to mandibular trauma. *Can Assoc Radiol J.* 2014; 65(4):360-365.
6. Psimopoulou M, Antoniadis K, Magoudi D, Karakasis D. Tympanic plate fracture following mandibular trauma. *Dentomaxillofac Radiol.* 1997; 26(6):344-346.
7. Baxter MC, Keller M, Shah A, Wise S. Surgical Emphysema Following Canalplasty for Aural Exostoses. *Otol Neurotol.* 2017; 38(8):1174-1177.
8. Chhabra N, Rezaee RP, Tucker HM, Megerian CA. Subcutaneous emphysema after otologic surgery: a case report. *Am J Otolaryngol.* 2012; 33(4):489-492.
9. Von Blumenthal H, Fisher EW, Adlam DM, Moffat DA. Surgical emphysema: a novel complication of aural exostosis surgery. *J Laryngol Otol.* 1994; 108(6):490-491.

10. Rodríguez-Martín Minerva, Corriols-Noval Patricia, López-Simón Eugenia, Salvatierra-Vicario Belén, Cobo-Díaz Ramón, García-Ibáñez Yaiza et al. Dehiscencia de pared anterior de conducto auditivo externo con afectación de articulación temporomandibular tras cirugía de exóstosis. Revisión sistemática. *Rev ORL*. 2023; 14(1): 55-61. <https://doi.org/10.14201/orl.28559>
11. Arechvo I, Giniunaite AM, Balseris S. Bilateral fracture of the styloid process with parapharyngeal emphysema. *Otol Neurotol*. 2014; 35(4): e155-e156.
12. Gök H, Şeker S, Peker HO, Çal MA, Altay T, Çelik S. A rare case report: Cervical subcutaneous and mediastinal emphysema due to mastoid fracture. Nadir bir olgu sunumu: Mastoid kırığı nedeniyle oluşan servikal subkutan ve mediastinal amfizem. *Ulus Travma Acil Cerrahi Derg*. 2020; 26(2): 328-330.
13. Plaza G, Martínez-San Millán J, Navas C, Martínez-Vidal A. Parapharyngeal emphysema-an unusual complication of temporal bone trauma. *J Laryngol Otol*. 1998; 112(3):301-302.
14. Matos J, Oliveira P, Ferreira M, Conde A. Parapharyngeal space emphysema by temporal bone fracture resulting from mandibular trauma. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2013; 79(4): 525.
15. García-Fernández R, Gasós-Lafuente AM, Guallar-Larpa M, Lavilla-Martín de Valmaseda MJ. Enfisema parafaríngeo tras fractura de la porción timpánica del hueso temporal. Descripción de un caso. *Rev ORL*. 2023: e31791. <https://doi.org/10.14201/orl.31791>
16. Betz B, Wiener M. Air in the temporomandibular joint fossa: CT sign of temporal bone fracture. *Radiology*. 1991; 180(2):463-466.
17. Montaser A, Goyal M, Weiner M. Air in temporomandibular joint: an indirect, specific CT sign of temporal bone fracture in the setting of head trauma. *J Trauma*. 2011; 70(4):73.
18. Wood C, Hunt C, Bergen D. Tympanic plate fractures in temporal bone trauma: prevalence and associated injuries. *Am J Neuroradiol*. 2014; 35(1):186-190.

EPIDEMIOLOGÍA DEL VÉRTIGO INFANTIL. REVISIÓN BIBLIOGRÁFICA Y METANÁLISIS

Epidemiology of childhood vertigo. Bibliographic review and meta-analysis

Chiara MONOPOLI-ROCA ¹; Guillermo CORONEL-TOUMA ¹; Cristina Nicole ALMEIDA-AYERVE ¹; Susana MARCOS-ALONSO ¹; Ángel BATUECAS-CALETRÍO ^{1,2}; José Luis PARDAL-REFOYO ^{1,2}

¹Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Departamento de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, Salamanca, España.

²Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Facultad de Medicina, Universidad de Salamanca, España.

Correspondencia: gscoronel@saludcastillayleon.es

Fecha de recepción: 3 de noviembre de 2023

Fecha de aceptación: 5 de diciembre de 2023

Fecha de publicación: 11 de diciembre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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: En la edad pediátrica, el vértigo constituye una entidad menos frecuente en comparación con los adultos, con una prevalencia probablemente subestimada. El objetivo de nuestro estudio fue determinar la prevalencia del vértigo infantil a través de la revisión de la literatura y metanálisis. Método: Búsqueda sistemática en bases de datos como PubMed, WoS, BVS, CARPHA y EMBASE, siguiendo las directrices PRISMA. Se incluyeron estudios epidemiológicos sobre vértigo en niños de 0 a 14 años y se evaluó el riesgo de sesgo con la escala ROBINS I. Realizamos un análisis cualitativo de las causas del vértigo según la literatura y un análisis cuantitativo sobre la prevalencia del vértigo infantil utilizando datos del SNS hasta abril de 2023. Utilizamos JAMOVI para el análisis estadístico y metanálisis, con un intervalo de confianza del 95% y un modelo de efectos aleatorios. Resultados: De los 29 artículos revisados, 22 fueron analizados, y se determinó una prevalencia global de vértigo infantil del 18.3% (IC 95%: 5.1-31.5%). Los diagnósticos se dividieron en tres grupos, destacando el vértigo periférico (66.74%). Además,

en los registros del SNS de España, el vértigo afectó al 0.72% de los niños ingresados menores de 14 años, con un 4.77% de estos ingresos correspondiendo a niños en el mismo grupo de edad. Discusión: Nuestro estudio demostró que el vértigo infantil tiene una prevalencia del 18.3%, con el vértigo posicional paroxístico benigno (VPPB) como diagnóstico más frecuente. Aunque algunos estudios muestran discrepancias en las cifras de prevalencia, nuestra investigación subraya la complejidad de diagnosticar el vértigo en niños debido a la diversidad de etiologías. Conclusiones: En nuestro estudio, el vértigo afecta al 18% de los niños menores de 14 años, siendo el vértigo periférico la causa principal. Condiciones como VPPB, enfermedad de Ménière y migraña son comunes. Debido a la diversidad de estudios, determinar la prevalencia exacta es complejo. Estos hallazgos marcan una pauta para futuras investigaciones.

PALABRAS CLAVE: vértigo; epidemiología; edad pediátrica.

SUMMARY: Introduction and objective: In the pediatric age group, vertigo is a less common condition compared to adults, likely underreported in prevalence. The aim of our study was to determine the prevalence of pediatric vertigo through literature review and meta-analysis. Method: Systematic searches were conducted in databases including PubMed, WoS, BVS, CARPHA, and EMBASE, following PRISMA guidelines. Epidemiological studies on vertigo in children aged 0 to 14 years were included. Bias risk was assessed using ROBINS-I scale. A qualitative analysis of vertigo causes from literature and a quantitative analysis of pediatric vertigo prevalence using SNS data up to April 2023 were performed. Statistical analysis and meta-analysis were conducted using JAMOVI, employing a 95% confidence interval and a random-effects model. Results: Out of the 29 reviewed articles, 22 were analyzed, revealing a global prevalence of pediatric vertigo at 18.3% (95% CI: 5.1-31.5%). Diagnoses were categorized into three groups, with peripheral vertigo (66.74%) being prominent. Additionally, in Spain's SNS records, vertigo affected 0.72% of children under 14 years, with 4.77% of these cases belonging to the same age group. Discussion: Our study demonstrated that pediatric vertigo has a prevalence of 18.3%, with benign paroxysmal positional vertigo (BPPV) as the most frequent diagnosis. Although some studies show discrepancies in prevalence figures, our research emphasizes the complexity of diagnosing vertigo in children due to the diversity of etiologies. Conclusions: In our study, vertigo affects 18% of children under 14 years old, with peripheral vertigo being the main cause. Conditions like BPPV, Meniere's disease, and migraine are common. Due to study diversity, determining the exact prevalence is complex. These findings set a direction for future research.

KEYWORDS: vertigo; epidemiology; pediatric age.

INTRODUCCIÓN

El vértigo y el mareo episódicos son menos frecuentes en los niños que en los adultos, con una prevalencia que oscila entre el 0,7% y el 15% en los que un pequeño porcentaje se debe a patología vestibular periférica claramente definida [1]. Los síntomas con frecuencia no son bien interpretados lo que puede dificultar y retrasar el diagnóstico [1].

Las principales formas de vértigo en la edad infantil son: el vértigo paroxístico benigno de la

infancia, la migraña vestibular y los mareos relacionados con la otitis media o la otitis serosa [1].

El diagnóstico y el tratamiento de las patologías que cursan con mareos o vértigo en la población pediátrica plantea dificultades debido a su complicada y variada etiología (vestibulares centrales o periféricas, enfermedades psicógenas, sistémicas o genéticas). En el metanálisis de Zhang et al. (2023) [2] se incluyeron 23 estudios transversales retrospectivos con 7647 niños con vértigo de los que el vértigo periférico fue más frecuente (52.20%, IC del 95%: 42.9-61.4%) que el vértigo

central (28.7%, IC del 95%: 20.8-37.4%), vértigo psicógeno (7.0%, IC del 95%: 4.8-10.0%) y otros vértigos asociados a patología sistémica (4.7%, IC del 95%: 2.6-8.2%). Los diagnósticos más frecuentes fueron el vértigo paroxístico infantil (19.50%, IC del 95%: 13.5-28.3%), episodios de vértigo asociados con sinusitis (10.7%, IC del 95%: -11.2-32.6%), la disfunción vestibular o del canal semicircular (9.20%, IC del 95%: 5.7-15.0%), el vértigo posicional paroxístico benigno (7.20%, IC del 95%: 3.9-11.5%) y el ortostatismo (6,8%, IC del 95%: 3,4-13,0%). La migraña vestibular (20,3%, IC del 95%: 15,4-25,2%) fue el diagnóstico etiológico más frecuente en patología de causa central [2]. En el metanálisis de Gioacchini et al. (2014) las etiologías más frecuentemente recogidas en 724 niños fueron la migraña vestibular (27.82%), el vértigo paroxístico benigno (15.68%), la neuritis vestibular (9.81%), enfermedad de Ménière (4.08%), el vértigo posicional paroxístico (2.12%), el vértigo psicógeno (8.28%), la otitis media y otitis serosa (4.1%), el traumatismo craneal (3.82%) y la hipotensión ortostática (0.58%) [1].

La etiología varía según la edad [3]. En edad preescolar, las causas más comunes incluyen el vértigo paroxístico infantil (29,6%), la migraña o vértigo posicional paroxístico benigno (14,2%) y patologías del sistema nervioso central (23%). En edad escolar primaria, las causas más comunes incluyen el vértigo paroxístico infantil (30,1%), la migraña vestibular o vértigo posicional benigno (18,5%), el origen psicógeno (12,7%) y cardiogénico (19,7%). En adolescentes, las causas más comunes incluyen migraña vestibular o vértigo posicional (34,8%), el psicógeno (14,4%) y cardiogénico (16,5%) [3].

El metanálisis de Zhang et al. (2023) pone de manifiesto la necesidad de profundizar en la investigación sobre la etiología, exploración, pautas de tratamiento y pronóstico del vértigo infantil [2]. Los datos sobre la prevalencia de las patologías infantiles que se manifiestan como vértigo o mareo son muy dispares y no concluyentes.

El objetivo de este estudio es revisar los datos sobre la prevalencia del vértigo infantil mediante revisión de la literatura y conocer de forma crítica la precisión de los datos publicados.

MATERIAL Y MÉTODO

Búsqueda bibliográfica sistemática en las bases de datos PubMed (PubMed (nih.gov)), WoS (Clarivate), BVS (Portal Regional da BVS (bvsaud.org)), CARPHA (CARPHA EvIDeNCe Portal (bvsaud.org)) y EMBASE PICO (Welcome - Embase) con los descriptores y estrategias de búsqueda “child AND vertigo AND epidemiology” (como términos MeSH/DeCS y en título y resumen). Se siguieron las directrices PRISMA (<http://www.prisma-statement.org/>) [4].

Criterios de inclusión. Aquellos artículos que recogen datos epidemiológicos (incidencia, prevalencia) sobre vértigo, inestabilidad o desequilibrio en el niño en edades comprendidas entre los 0 y 14 años.

Criterios de exclusión. Artículos dedicados al estudio de una patología concreta. Estudios sobre el diagnóstico o tratamiento de patologías del equilibrio en la infancia sin referencia a la población general. Estudios sobre calidad de vida o discapacidad. Las búsquedas y la selección de artículos fueron revisadas por los dos autores del estudio de forma independiente y se cerró el día 1 de abril de 2023. La lectura de los artículos y extracción de datos se realizó con la ayuda de SciSpace Copilot (<https://typeset.io/>) y Bing Copilot (<https://www.microsoft.com/es-es/edge/features/the-new-bing>). La selección y fusión de artículos repetidos se realizó con el programa Rayyan (<https://rayyan.ai/>).

Para evaluar el riesgo de sesgo se utilizó la escala RoBINS I (Risk of bias tools - Current version of ROBINS-I) con la herramienta RoBvis (Risk of bias tools - robvis (visualization tool)).

Se realizó estudio cualitativo sobre las causas del vértigo según la literatura seleccionada y cuantitativo sobre la prevalencia del vértigo infantil

según los registros del SNS (periodo 1997 a 2021 de los que se disponían de datos a fecha 1 de abril de 2023) y según la literatura seleccionada.

El análisis de datos se realizó con el programa JAMOVI (The jamovi project. Jamovi, versión 2.3, 2022, <https://www.jamovi.org>) para la estadística general y el metanálisis sobre los datos de los artículos seleccionados tras la revisión bibliográfica ([5, 6]). Los resultados se calcularon para un intervalo de confianza del 95%. El metanálisis se realizó según el modelo de efectos aleatorios.

RESULTADOS

SELECCIÓN DE ARTÍCULOS

En la Figura 1 se resumen los resultados y selección de artículos de la búsqueda bibliográfica.

De 29 artículos con lectura completa, 7 fueron excluidos por diversos motivos [1, 7–12].

Se seleccionaron 22 artículos [13–34] (16 retrospectivos, 4 transversales y 4 estudios prospectivos) que contenían resultados sobre el número de niños con diagnóstico en alguno de los grupos para hacer los cálculos de prevalencia de los diagnósticos en la población infantil. El rango años de publicación de los artículos está entre 1980 y 2022. El rango de los años de investigación está entre 1985 y 2020.

RESULTADOS EN LOS ARTÍCULOS SELECCIONADOS

La Tabla 1 (Anexo 1) recoge los datos principales obtenidos de los artículos seleccionados [13–34]. Los diagnósticos indicados en los artículos como vértigo paroxístico de la infancia, vértigo recurrente de la infancia o migraña vestibular se agruparon como equivalentes migrañosos en la infancia. Los diagnósticos se agruparon en 3 subgrupos siguiendo la clasificación del artículo de D'Agostino et al. (1997) [16] (Grupo 1: vértigo y patología coclear, Grupo 2: vértigo periférico, Grupo 3: vértigo central).

Este grupo de artículos incluyen 657409 niños con vértigo. En la Tabla 2 se muestran el número de

pacientes incluidos en cada grupo y la proporción expresada en porcentaje con su IC 95%: 144248 del Grupo 1 21.9% (21.4–22.4%), 438711 del Grupo 2 66.74% (66.59–66.89%), y 2099 del grupo 3 0.32% (0.3–0.43%). En el grupo otros se incluyen 72351 pacientes, 11% (10.79–11.21%) en los que no se estableció el diagnóstico de la entidad clínica.

PREVALENCIA GLOBAL

Para el cálculo de la prevalencia se seleccionaron 15 artículos que recogían el número total de pacientes atendidos con o sin vértigo (80280602 pacientes en total), se excluyeron los artículos en los que recogieron datos de niños sólo con vértigo. El resultado de la prevalencia en estos artículos se muestra en la Figura 2.

La prevalencia global de niños con vértigo en los estudios seleccionados fue 18.3% (IC 95% 5.1–31.5%). La heterogeneidad es muy elevada (I² de 100%, Q muy elevada) como se recoge en la Tabla 3. Existe sesgo de publicación muy elevado (Tabla 3). Las figuras 3 y 4 muestran la evaluación del riesgo de sesgo evaluados con la escala ROBINS-I para cada uno de los artículos (Figura 3) y para el conjunto de los artículos (Figura 4).

RESULTADOS DE LA PREVALENCIA DE VÉRTIGO INFANTIL EN LOS REGISTROS DEL SNS DE ESPAÑA

En la Tabla 4 se muestra el número de pacientes entre 0 a 14 años que fueron dados de alta en los hospitales del SNS de España entre los años 1997 a 2021 que incluían el diagnóstico de mareo o vértigo (código 93-Afecciones asociadas con mareo o vértigo). La proporción de altas expresada en porcentaje, por este motivo en niños menores de 14 años respecto al total de altas por mareo o vértigo en todas las edades fue del 4.77% (IC 95% 4.45%–5.09%), con una variación entre 3.54% en 2016 (IC 95% 2.81%–4.27% y en 2020 (IC 95% 2.81%–4.27%) al 7.38% en 2000 (IC 95% 6.13%–8.63%). La proporción de patologías con mareos y vértigos respecto al total de diagnósticos en niños

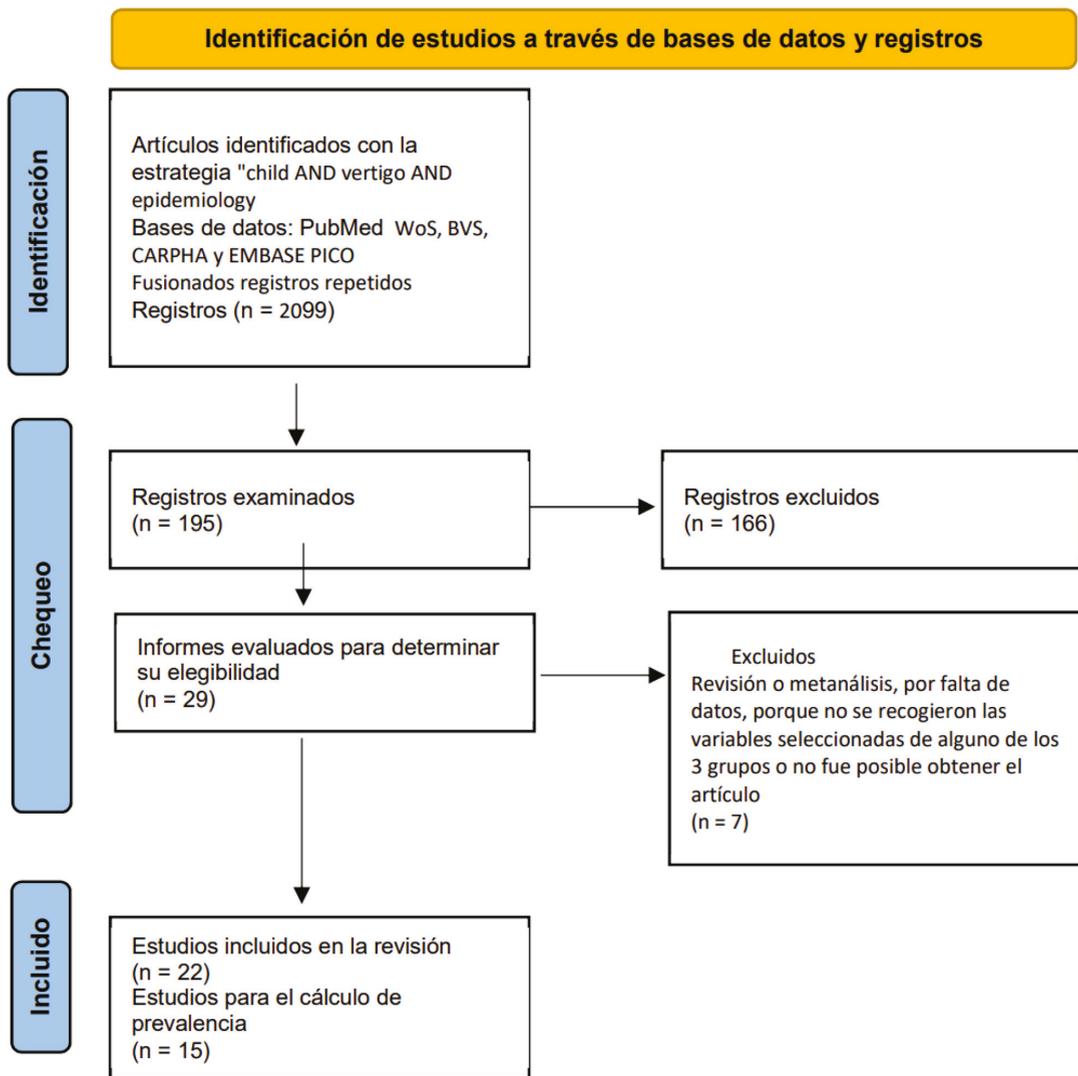


Figura 1. Diagrama PRISMA con las búsquedas bibliográficas y selección de artículos.

menores de 14 años en el mismo periodo fue del 0.72% (IC 95% 0.67%, 0.75%).

Según estos datos, el mareo o vértigo está presente en el 0.72% de los niños ingresados menores de 14 años (IC 95% 0.67%-0.75%) y de los ingresos por mareo o vértigo el 4.77 (IC 95% 0.67%-0.75%) son niños menores de 14 años.

DISCUSIÓN

En los últimos años, la investigación sobre patología vestibular ha ido adquiriendo mayor interés en relación a los desórdenes vestibulares en la edad pediátrica. En nuestro estudio, hemos realizado una aproximación a través de una revisión

EPIDEMIOLOGÍA DEL VÉRTIGO INFANTIL. REVISIÓN BIBLIOGRÁFICA Y METANÁLISIS
 MONOPOLI-ROCA C, CORONEL-TOUMA G, ALMEIDA-AYERVE CN ET AL.

Tabla 2. Pacientes incluidos en cada grupo y la proporción expresada en porcentaje con su IC 95%.

Grupo diagnóstico	N	% (IC 95%)	Diagnósticos más frecuentes en cada grupo (n)	Respecto a su grupo % (IC 95%)	Respecto a la muestra % (IC 95%)
Grupo 1	144248	21.9% (21.4, 22.4)	Enf. Ménière 144131	99.88% (99.68, 100)	21.94% (21.74%, 22.14%)
Grupo 2	438711	66.74% (66.59, 66.89)	VPPB 323892	73.89 (73.66, 74.12)	49.29% (49.09%, 49.49%)
			Neuritis vestibular 114782	26.19 (25.95, 26.43)	17.47% (17.27%, 17.67%)
Grupo 3	2099	0.32% (0.3, 0.43)	Equivalentes migrañosos en la infancia 1783	84.99 (80.27, 89.71)	0.27% (0.24%, 0.30%)
Otros	72351	11% (10.79, 11.21)			
Total	657409				

Grupo 1: vértigo y patología coclear, Grupo 2: vértigo periférico, Grupo 3: vértigo central

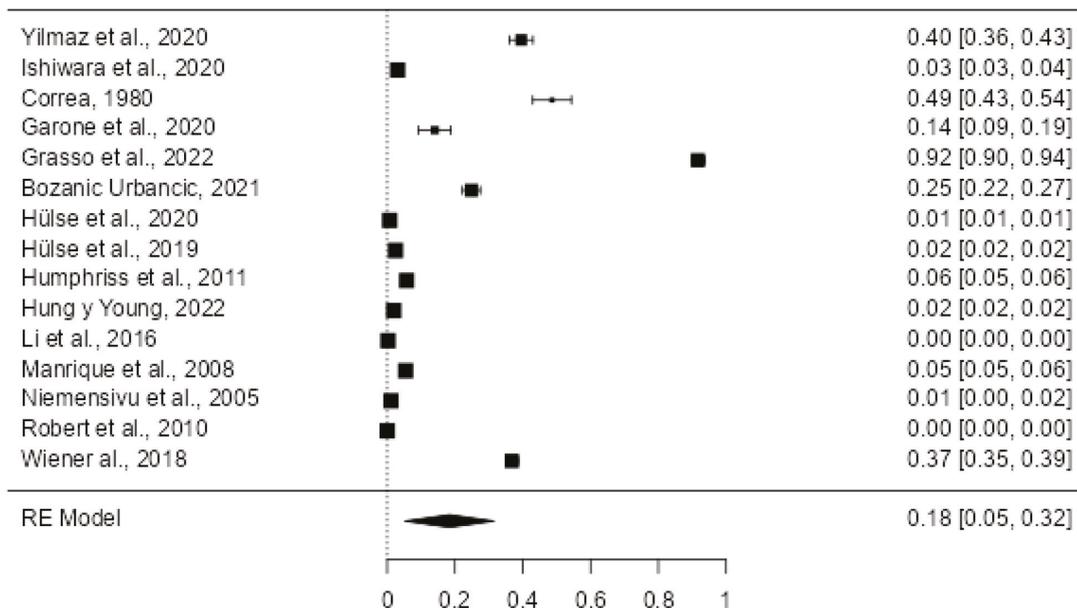


Figura 2. Forest Plot con los datos de prevalencia del vértigo infantil entre los pacientes que consultaron por vértigo en 15 artículos seleccionados.

sistemática y metanálisis dirigido a conocer la prevalencia de la patología vestibular en la infancia.

Nuestros resultados son similares a los obtenidos en el estudio realizado por Lüscher et al., y otros estudios, donde la principal causa de vértigo es de

origen vestibular [28]. Generalmente los estudios incluidos en este metanálisis son basados en datos obtenidos de consultas otorrinolaringológicas, o incluso de consultas especializadas en otoneurología, por lo que, en la mayoría de ellos el vértigo

EPIDEMIOLOGÍA DEL VÉRTIGO INFANTIL. REVISIÓN BIBLIOGRÁFICA Y METANÁLISIS
 MONOPOLI-ROCA C, CORONEL-TOUMA G, ALMEIDA-AYERVE CN ET AL.

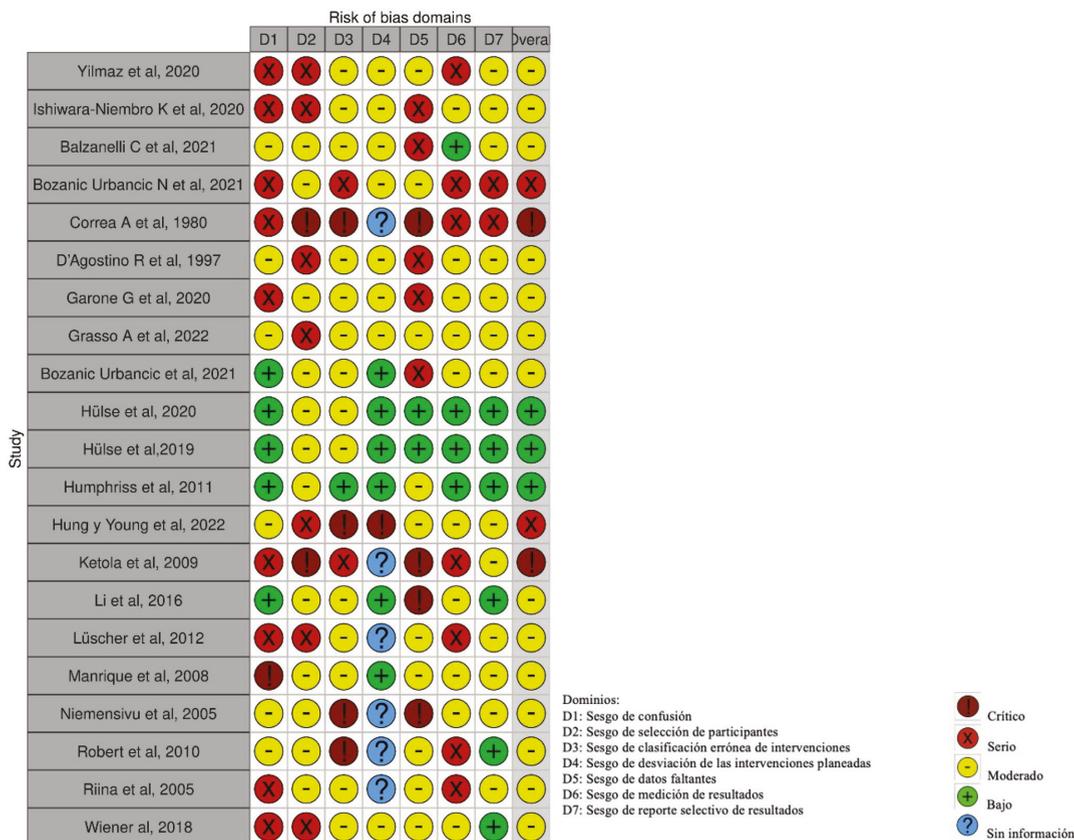


Figura 3. Evaluación del riesgo de sesgo de la calidad metodológica de cada estudio aplicando la escala ROBINS-I.

tendrá una etiología periférica. Por este motivo, podría existir un sesgo de selección, sin embargo, en una minoría también se incluyen en nuestro estudio, artículos como el realizado por Hülse et al., que analizan los resultados de datos obtenidos de compañías de seguros de salud, los cuales no han sido derivados específicamente a las consultas de otorrinolaringología [19, 20].

Globalmente las patologías más frecuentes son el VPPB (49.29%, IC 95% 49.09%-49.49%), la enfermedad de Ménière (21.94%, IC 95% (21.74%, 22.14%), la neuritis vestibular (17.47%, IC 95% 17.27%, 17.67%) y los equivalentes migrañosos

en la infancia (0.27%, IC 95% 0.24%, 0.30%). En nuestro estudio, al igual que en otros, la patología más frecuente en todos los grupos de edad es el VPPB, siendo creciente la incidencia a mayor edad del paciente [19, 28]. Según nuestros resultados las patologías más frecuentes tras el VPPB (49.29%, IC 95% 49.09%-49.49%) son la enfermedad de Ménière (21.94%, IC 95% (21.74%, 22.14%), la neuritis vestibular (17.47%, IC 95% 17.27%, 17.67%) y los equivalentes migrañosos en la infancia (0.27%, IC 95% 0.24%, 0.30%). Sin embargo, la mayoría de los estudios consideran que la patología más frecuente dentro de la población infantil con

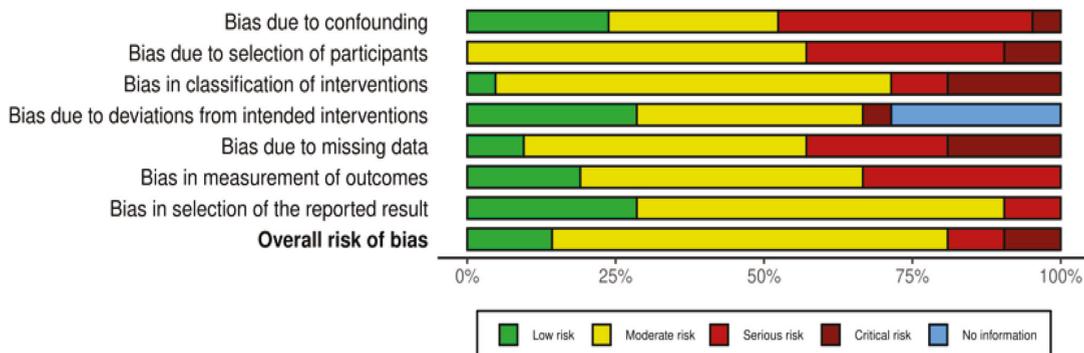


Figura 4. Evaluación del riesgo de sesgo general de la calidad metodológica aplicando la escala ROBINS-I. (Sesgos dimensiones: de confusión, de selección de los participantes, de clasificación errónea de las intervenciones, de desviación de las intervenciones planeadas, de datos faltantes, de medición de los resultados, de reporte selectivo de los resultados y global).

Tabla 3. Resumen de los datos estadísticos de heterogeneidad y el sesgo de publicación en los 15 artículos seleccionados.

Heterogeneity Statistics	
Tau	0.261
Tau ² *	0.068 (SE= 0.0258)
I ²	100%
Q	65984.519 (p<0.001)
N a prueba de fallos **	658280 (p<0.001)
Tau de Kendall	0.181 (p=0.379)
Prueba de regresión Z para determinar la asimetría ***	2.518 (p=0.012)

*Tau² máxima verosimilitud restringida

**Análisis N a prueba de fallos (*File Drawer Analysis*): cálculo de N a prueba de fallos mediante el enfoque de Rosenthal

***Prueba de correlación de rangos para la asimetría del *Funnel Plot*

vértigo son los equivalentes migrañosos [22, 25, 30, 32]. En segundo lugar, de frecuencia, los diferentes autores difieren. En este estudio la segunda etiología causante de vértigo en la infancia es la enfermedad de Ménière. Sin embargo, según Manrique et al. se encuentra en segunda posición el vértigo psicógeno [29], y según Ketola S et al. el vértigo asociado a otitis media [25]. En la mayoría de los estudios incluidos, los equivalentes migrañosos

se disgregan en diferentes diagnósticos como son el vértigo paroxístico benigno de la infancia, la migraña vestibular o el vértigo recurrente de la infancia, a diferencia de nuestro estudio que los engloba todos ellos en un único diagnóstico.

Por grupos, según nuestro estudio, el VPPB fue el diagnóstico más frecuente en el grupo de niños con patología vestibular periférica (73.89%. IC 95% 73.66-74.12%), la enfermedad de Ménière fue la patología que con mayor frecuencia se diagnosticó en el grupo de patología cocleo-vestibular (99.88%, IC 95% 99.68-100%), y la patología neurológica central más frecuente fueron los equivalentes migrañosos de la infancia (84.99%, IC 95% 80.27-89.71%). Sin embargo, según el estudio de Lee et al., (2017) el vértigo paroxístico benigno de la infancia seguido de la migraña vestibular fueron las etiologías más frecuentes en los grupos menores de 6 años y entre 7 y 12 años de edad; además en el grupo entre 13 y 18 años, la migraña vestibular constituye la causa más frecuente. Por otra parte, Yilmaz et al., (2020) en su estudio menciona que de todos los pacientes (761) el 25.6% presentaron vértigo paroxístico seguido de un 6.8% con migraña vestibular y el 4.5% vértigo de origen psicógeno; destacar que en último lugar se describe con 2.6% fueron diagnosticados de vértigo de origen

EPIDEMIOLOGÍA DEL VÉRTIGO INFANTIL. REVISIÓN BIBLIOGRÁFICA Y METANÁLISIS
 MONOPOLI-ROCA C, CORONEL-TOUMA G, ALMEIDA-AYERVE CN ET AL.

Tabla 4. Resultados de la prevalencia de vértigo infantil en los registros del SNS de España.

	0-14 años	varones	mujeres	Total altas con mareo/vértigo en todas las edades	% de altas	Total diagnósticos por todas las causas 0-14 años	% por vértigo
1997	301	140	159	4433	6.79	650642	0.68
1998	292	136	156	4424	6.60	681596	0.65
1999	320	159	161	4349	7.36	683281	0.64
2000	340	180	160	4609	7.38	723198	0.64
2001	340	150	186	4949	6.87	736424	0.67
2002	320	151	169	4818	6.64	732477	0.66
2003	267	112	155	4715	5.66	757825	0.62
2004	277	120	157	4875	5.68	774484	0.63
2005	245	105	139	5059	4.84	799941	0.63
2006	268	115	150	5709	4.69	847596	0.67
2007	268	120	146	6118	4.38	891661	0.69
2008	265	131	132	6598	4.02	924146	0.71
2009	281	141	140	6617	4.25	945558	0.70
2010	272	141	127	6731	4.04	953114	0.71
2011	275	136	136	7021	3.92	98538	7.13
2012	320	161	159	6877	4.65	972256	0.71
2013	345	173	172	7362	4.69	963661	0.76
2014	338	167	171	7249	4.66	980501	0.74
2015	325	152	170	7230	4.50	983376	0.74
2016	268	122	146	7569	3.54	914608	0.83
2017	305	146	159	7878	3.87	939584	0.84
2018	282	141	138	7554	3.73	913094	0.83
2019	294	138	153	7859	3.74	928999	0.85
2020	195	83	112	5501	3.54	744518	0.74
2021	260	109	151	6127	4.24	832463	0.74
Total	7263	3429	3804	152231	4.77 (IC 95% 0.67%, 0.75%)	21260383	0.72 (IC 95% 0.67%, 0.75%)

epiléptico, mismo que significativamente mayor en pacientes de menor edad. Además, nuestros resultados son comparables con los de Hung C et al., quienes determinan que dentro de los niños con vértigo y alteraciones en las pruebas audiométricas la etiología más frecuente fue la Enfermedad de Ménière [22]. Li C-M et al. demuestra que los pacientes diagnosticados con trastornos vestibulares periféricos tienen mayor probabilidad de asociar alteraciones auditivas que la población pediátrica general [27].

Los estudios seleccionados son en su mayoría retrospectivos y no recogen datos de la población general resultado con una alta heterogeneidad y con sesgo de publicación.

Según los resultados la prevalencia del vértigo infantil se sitúa en el 18.3% (IC 95% 5.1%-31.5%). Este resultado global difiere en gran medida de los resultados obtenidos en algunos estudios como el realizado por Niemensivu R et al., donde la prevalencia de vértigo/mareo en la infancia es del 8% [32] o el realizado por Li C-M et al. donde la

prevalencia es de un 5.3% de la población infantil [27]. Según Manrique et al., la prevalencia de trastornos del equilibrio en la infancia es del 81.1% de los niños que acuden a las consultas de Otoneurología, lo cual no puede ser extrapolable a la población general [29].

La prevalencia global de niños con vértigo en los estudios seleccionados fue 18.3% (IC 95% 5.1-31.5%). Según los datos del SNS de los pacientes con ingreso hospitalario con vértigo, el 4.77% (IC 95% 0.67%-0.75%) son niños menores de 14 años y en este grupo de edad el vértigo se presenta en el 0.72 % (IC 95%, 0.67%, 0.75%).

LIMITACIONES DEL ESTUDIO

No se registraron todos los resultados de los artículos, disminuyendo la precisión del análisis. La agrupación de resultados de variables conduce a una pérdida de precisión adicional. A pesar de incluir estudios de diferentes países, no se analizaron variables demográficas, lo que podría haber influido en los resultados.

El número de pacientes no diagnosticados se agrupó dentro del grupo "otros", implicando una falta de información específica sobre esta categoría.

La mayoría de los estudios fueron retrospectivos, lo que puede introducir sesgos debido a la falta de datos completos. La dificultad para conocer la sintomatología exacta en edades tempranas representa una limitación.

Existe un elevado riesgo de sesgo, evaluado a través de la escala de ROBINS I. La elevada heterogeneidad de los estudios y el riesgo moderado de sesgo de publicación sugieren que los resultados deben interpretarse con precaución. La representatividad y aplicabilidad a un entorno específico pueden ser limitadas.

Las edades de los pacientes en los estudios no son homogéneas, afectando la comparabilidad y generalización de los resultados.

La amplia gama de años de publicación puede introducir sesgos en la nomenclatura, criterios de diagnóstico y técnicas utilizadas en los estudios. Además, la selección de muestras principalmente de consultas especializadas puede no representar adecuadamente a la población general.

Estas limitaciones ponen de manifiesto la necesidad de interpretar los resultados con cautela y resaltan áreas para futuras investigaciones que aborden estas limitaciones para mejorar la comprensión del vértigo en la infancia.

CONCLUSIONES

La prevalencia del vértigo en niños menores de 14 años es del 18%, siendo el vértigo periférico la causa más común.

El VPPB, la enfermedad de Ménière, la neuritis vestibular y los equivalentes migrañosos son las condiciones más prevalentes en niños con vértigo.

Debido a una elevada heterogeneidad entre los estudios y riesgo alto-moderado de sesgo en los incluidos en este análisis, que incluyen series no aleatorizadas, variación en las poblaciones estudiadas, diferentes diseños de estudio y diversos métodos de recopilación de datos, no podemos determinar con precisión la prevalencia del vértigo en la infancia.

Estas conclusiones proporcionan una comprensión detallada de la naturaleza del vértigo en la infancia, crucial para guiar futuras investigaciones y estrategias de tratamiento.

BIBLIOGRAFÍA

1. Gioacchini FM, Alicandri-Ciufelli M, Kaleci S, Magliulo G, Re M. Prevalence and diagnosis of vestibular disorders in children: a review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2014;78:718-24. doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2014.02.009>
2. Zhang J, Zhu Q, Shen J, Chen J, Jin Y, Zhang Q, et al. Etiological classification and management

- of dizziness in children: A systematic review and meta-analysis. *Front Neurol.* 2023;14:1125488. Doi: <https://doi.org/10.3389/fneur.2023.1125488>
3. Kelly EA, Janky KL, Patterson JN. The Dizzy Child. *Otolaryngol Clin North Am.* 2021;54:973-87. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.otc.2021.06.002>
 4. Page M, Moher D, Bossuyt P, Boutron I, Hoffmann T, Cd M, et al. PRISMA 2020 explanation and elaboration: updated guidance and exemplars for reporting systematic reviews. *BMJ* [Internet]. 2021 [citado 4 de agosto de 2023];372. Recuperado a partir de: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/33781993/>
 5. Viechtbauer W. Conducting meta-analyses in R with the metafor package. *J Stat Softw.* 36:1-48. Doi: <https://doi.org/10.18637/jss.v036.i03>
 6. R: A Language and environment for statistical computing. (Version 4.1) [Internet]. 2021. Recuperado a partir de: <https://cran.r-project.org>. (R packages retrieved from MRAN snapshot 2022-01-01).
 7. Campos MI, Ganança FF, Caovilla HH, Ganança MM. Prevalência de sinais de disfunção vestibular em crianças com vertigem e/ou outros tipos de tontura. *Rev Bras Med Otorrinolaringol.* 1996;165-71.
 8. Ganança MM. Qual a prevalência da vertigem e outras tonturas de origem vestibular de acordo com a faixa etária? *Acta AWHO.* 2000;170-1.
 9. Henriques IF, Douglas de Oliveira DW, Oliveira-Ferreira F, Andrade PMO. Motion sickness prevalence in school children. *Eur J Pediatr.* 2014;1473-82. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00431-014-2351-1>.
 10. Herraiz C, Hernández FJ, Tapia MC, De Lucas P, Arroyo R. [Equilibrium disorders in childhood]. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 1998;49:363-8.
 11. Jahn K, Langhagen T, Schroeder AS, Heinen F. Vertigo and dizziness in childhood - update on diagnosis and treatment. *Neuropediatrics.* 2011;42:129-34. Doi: <https://doi.org/10.1055/s-0031-1283158>.
 12. Yin M, Ishikawa K, Wong WH, Shibata Y. A clinical epidemiological study in 2169 patients with vertigo. *Auris Nasus Larynx.* 2009;36:30-5. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.anl.2008.03.006>
 13. Balzanelli C, Spataro D, Redaelli de Zinis LO. Prevalence of Pediatric and Adolescent Balance Disorders: Analysis of a Mono-Institutional Series of 472 Patients. *Children.* 2021;8:1056. Doi: <https://doi.org/10.3390/children8111056>.
 14. Božanić Urbančić N, Vozel D, Urbančić J, Battelino S. Unraveling the Etiology of Pediatric Vertigo and Dizziness: A Tertiary Pediatric Center Experience. *Medicina (Mex).* 2021;57:475. doi: <https://doi.org/10.3390/medicina57050475>.
 15. Correa U A. Trastornos del equilibrio en los niños. *Rev Chil Pediatría.* 1980;51:61-2. doi: <https://doi.org/10.4067/S0370-41061980000100009>.
 16. D'Agostino R, Tarantino V, Melagrana A, Taborelli G. Otoneurologic evaluation of child vertigo. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1997;40:133-9. Doi: [https://doi.org/10.1016/S0165-5876\(97\)00032-3](https://doi.org/10.1016/S0165-5876(97)00032-3).
 17. Garone G, Suppiej A, Vanacore N, La Penna F, Parisi P, Calistri L, et al. Characteristics of Acute Nystagmus in the Pediatric Emergency Department. *Pediatrics.* 2020;146:e20200484. doi: <https://doi.org/10.1542/peds.2020-0484>.
 18. Grasso A, Poropat F, Kamagni Vodić T, Ghirardo S, Barbi E. How Age Matters in the Assessment of Vertigo in the Pediatric Emergency Department: A 10-Year Age-Stratified Etiology Survey. *Pediatr Emerg Care.* 2022;38:e43. Doi: <https://doi.org/10.1097/PEC.0000000000002242>.
 19. Hülse R, Warken C, Biesdorf A, Erhart M, Rotter N, Hörmann K, et al. Prävalenz peripher-vestibulärer Erkrankungen bei Kindern in Deutschland. *HNO.* 2020;68:360-6. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00106-019-00747-6>.
 20. Hülse R, Biesdorf A, Hörmann K, Stuck B, Erhart M, Hülse M, et al. Peripheral Vestibular Disorders: An Epidemiologic Survey in 70 Million Individuals. *Otol Neurotol.* 2019;40:88. Doi: <https://doi.org/10.1097/MAO.0000000000002013>.
 21. Humphriss RL, Hall AJ. Dizziness in 10 year old children: An epidemiological study. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2011;75:395-400. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2010.12.015>.
 22. Hung C-Y, Young Y-H. Evolution of pediatric vertigo/dizziness during the past two decades. *Acta Otolaryngol (Stockh).* 2022;142:562-7.

- Doi: <https://doi.org/10.1080/00016489.2022.2106381>.
23. Ishiwara-Niembro K, Pérez-Rodríguez MA, Navarro-Cervantes FA, Jiménez-Pérez JA. Trastornos vestibulares y del equilibrio en niños y adolescentes mexicanos: revisión de registros clínicos de 8 años. *Acta Otorrinolaringológica Esp*. 2021;72:137-42. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.otorri.2020.02.011>.
 24. Jahn K, Langhagen T, Schroeder AS, Heinen F. Vertigo and Dizziness in Childhood – Update on Diagnosis and Treatment. *Neuropediatrics*. 2011;42:129-34. Doi: <https://doi.org/10.1055/s-0031-1283158>.
 25. Ketola S, Niemensivu R, Henttonen A, Appelberg B, Kentala E. Somatoform disorders in vertiginous children and adolescents. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009;73:933-6. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2009.03.010>.
 26. Lee JD, Kim C-H, Hong SM, Kim SH, Suh M-W, Kim M-B, et al. Prevalence of vestibular and balance disorders in children and adolescents according to age: A multi-center study. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2017;94:36-9. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2017.01.012>.
 27. Li C-M, Hoffman HJ, Ward BK, Cohen HS, Rine RM. Epidemiology of Dizziness and Balance Problems in Children in the United States: A Population-Based Study. *J Pediatr*. 2016;171:240-247.e3. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2015.12.002>.
 28. Lüscher M, Theilgaard S, Edholm B. Prevalence and characteristics of diagnostic groups amongst 1034 patients seen in ENT practices for dizziness. *J Laryngol Otol*. 2014;128:128-33. Doi: <https://doi.org/10.1017/S0022215114000188>.
 29. Manrique Lipa RD, Soto Varela A, Santos Pérez S, Manrique Lipa RK, Lorenzo Lorenzo AI, Labella Caballero T. Alteraciones del equilibrio en pacientes menores de 16 años distribuidos por grupos de edad. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2008;59:455-62. Doi: [https://doi.org/10.1016/S0001-6519\(08\)75118-5](https://doi.org/10.1016/S0001-6519(08)75118-5).
 30. Niemensivu R, Pyykkö I, Wiener-Vacher SR, Kentala E. Vertigo and balance problems in children-An epidemiologic study in Finland. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2006;70:259-65. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2005.06.015>.
 31. O'Reilly RC, Morlet T, Nicholas BD, Josephson G, Horlbeck D, Lundy L, et al. Prevalence of Vestibular and Balance Disorders in Children. *Otol Neurotol*. 2010;31:1441. Doi: <https://doi.org/10.1097/MAO.0b013e3181f20673>.
 32. Riina N, Ilmari P, Kentala E. Vertigo and Imbalance in Children: A Retrospective Study in a Helsinki University Otorhinolaryngology Clinic. *Arch Otolaryngol Neck Surg*. 2005;131:996-1000. Doi: <https://doi.org/10.1001/archotol.131.11.996>.
 33. Wiener-Vacher SR, Quarez J, Priol AL. Epidemiology of Vestibular Impairments in a Pediatric Population. *Semin Hear*. 2018;39:229-42. Doi: <https://doi.org/10.1055/s-0038-1666815>.
 34. Yilmaz A, Abseyi S. Clinical and demographic characteristics of children and adolescents with acute vertigosymptoms: A cross-sectional study. *Turk J Med Sci*. 2020;50:1951-4. Doi: <https://doi.org/10.3906/sag-2010-228>.

ANEXO 1

Tabla 1. Resumen de los datos obtenidos de los artículos seleccionados [13–34].

Autor, año	Método	N total (población)	N muestra	N niños con vértigo	Otros	Grupos 1+2+3	Grupo 1	Grupo 2	Grupo 3
Lee et al., 2017	retr.		411	411	118	293	34	45	214
Yilmaz et al., 2020	trans.	761	301	301	34	267	0	0	267
Ishiwara et al., 2020	trans.	6444	200	200	72	128	14	2	112
Balzanelli et al., 2021	retr.		472	472	138	334	4	171	159
Bozanic et al., 2021	retr.		257	257	205	52	0	0	52
Correa 1980	retr.	296	144	144	47	97	0	70	27
D'Agostino et al., 1997	prosp.		282	282	0	282	73	67	142
Garone et al., 2020	retr.	206	29	137	54	83	0	8	75
Grasso et al., 2022	retr.	757		310	118	192	0	0	192
Bozanic Urbancic, 2021	retr.		1034	257	257	0	0	0	0
Hülse et al., 2020	retr.	9325021		70170	68756	1414	144	1270	0
Hülse et al., 2019	retr.	70315919	4543463	580330	118	580212	143885	436327	0
Humphriss et al., 2011	retr.	6965		400	400	0	0	0	0
Hung y Young, 2022	prosp.	37527		732	330	402	3	0	399
Ketola et al., 2009	retr.		119	119	65	54	0	14	40
Li et al., 2016	retr.	10954	586	29	29	0	0	0	0
Lüscher et al., 2012	prosp.		1034	1034	341	693	41	623	29
Manrique et al., 2008	retr.	8329	6576	454	323	131	3	4	124
Niemensivu et al., 2005	prosp.	1050	75	12	9	3	0	0	3
Robert et al., 2010	retr.	561151	2546	309	234	75	26	49	0
Riina et al., 2005	retr.		119	119	49	70	6	15	49
Wiener et al., 2018	retr.	2528	1037	930	654	276	15	46	215
		80280602	4556498	657409	72351	585058	144248	438711	2099

Grupo 1: vértigo y patología coclear, Grupo 2: vértigo periférico, Grupo 3: vértigo central.
 Prosp.: prospectivo; Retr.: retrospectivo; Trans.: transversal.

CAUSAS DE VÉRTIGO PERIFÉRICO EN LA INFANCIA

Causes of peripheral vertigo in childhood

Enrique COSCARÓN-BLANCO ¹; Pablo SANTOS-GORJÓN ¹; María-Cruz PÉREZ-LIEDO ¹;
Mar DE PRADO-SAN JOSÉ ¹; María MARTÍN-BAILÓN ¹; Michael BAUER ²;
María-Soledad SUÁREZ-ORTEGA ¹; Miriam GONZÁLEZ-SÁNCHEZ ¹

¹SACYL. Hospital Virgen de la Concha-Complejo asistencial de Zamora. Servicio de Otorrinolaringología. Zamora. España.

²SACYL Hospital de los Santos Reyes. Servicio de Otorrinolaringología. Aranda de Duero (Burgos). España.

Correspondencia: ecoscaronr@gmail.com

Fecha de recepción: 10 de julio de 2023

Fecha de aceptación: 30 de octubre de 2023

Fecha de publicación: 5 de diciembre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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: Dentro de los vértigos agudos y episódicos infantiles, los secundarios a traumatismos, otitis media, neuritis/laberinitis, fístula perilinfática, enfermedad de Ménière, paroxismia vestibular, vértigo posicional paroxístico benigno y vestibulopatía bilateral suponen en torno a un 10% de todos los trastornos vestibulares. Su diagnóstico debe ser precoz en base a los criterios definitorios, aunque en niños existen otros accesorios que deben conocerse (cambios del comportamiento, digestivos, etc...). El tratamiento buscará la resolución sintomática precoz de las crisis, la prevención o reducción de recidivas, la minimización y paliación de secuelas y la máxima normalización de su vida y actividad cotidiana. Objetivo: Realizar una breve y práctica revisión sobre la clínica, los criterios diagnósticos y el tratamiento del vértigo infantil en los supuestos anteriormente mencionados. Método: Revisión narrativa empleando PubMed, Fistera, ClinicalKey y Google Scholar. Resultados: Se obtuvieron citas, de las cuáles se desecharon aquellas no significativas por su carácter general, antigüedad, no relevancia a criterio de los autores o no disponibilidad en inglés o castellano. Se consideraron para la presente revisión un total de 60 trabajos. Discusión: Revisión narrativa sobre los temas descritos. Conclusiones: Los criterios diagnósticos y el tratamiento para

los tópicos propuestos en este capítulo están definidos para el adulto; sin embargo, en niños, deberemos considerar criterios accesorios para un pronto diagnóstico. El tratamiento está condicionado por la edad y se sustenta en varios pilares (farmacológico, hábitos de vida, rehabilitación y psicológico). El pronóstico, en general, es mejor que el del adulto por la plasticidad neural infantil.

PALABRAS CLAVE: vértigo infantil; vestibulopatía; enfermedades del laberinto; enfermedades vestibulares; niño; tratamiento.

SUMMARY: Introduction and objective: Within acute and episodic childhood vertigos, those secondary to trauma, otitis media, neuritis/labyrinthitis, perilymphatic fistula, Ménière's disease, vestibular paroxysmia, benign paroxysmal positional vertigo and bilateral vestibulopathy account for around 10% of all cases of infant vestibular disorders. Diagnosis must be early accomplished based on the defining criteria, although in children there are other accessory criteria that should be considered (behavioral changes, digestive, etc...). The treatment should achieve prompt symptomatic resolution of the crises, prevention or reduction of recurrences, minimization and palliation of sequelae and maximum normalization of daily life and activities. Objective: To carry out a brief and practical review on the symptoms, the diagnostic criteria and the treatment of infantile vertigo in the previously mentioned topics. Method: Narrative review using PubMed, Fistera, ClinicalKey and Google Scholar. Results: Citations were obtained, of which non-significant ones were discarded due to their general nature, age, non-relevance according to the authors' criteria, or non-availability in English or Spanish. A total of 60 articles were considered for this review. Discussion: Narrative review on the topics described. Conclusions: The diagnostic criteria and treatment for the topics proposed in this chapter are defined for adults; however, in children, we must consider accessory criteria for a prompt diagnosis. The treatment is conditioned by age and is based on several pillars (pharmacological, lifestyle, rehabilitation and psychological). The prognosis, in general, is better than that of adults due to childhood neural plasticity.

KEYWORDS: vertigo infantile; vestibulopathy; labyrinth diseases; vestibular diseases; child; treatment.

INTRODUCCIÓN

Dentro de los vértigos agudos y episódicos infantiles, los secundarios a traumatismos, otitis media, neuritis/laberintitis, fístula perilinfática, enfermedad de Ménière, paroxysmia vestibular, vértigo posicional paroxístico benigno y vestibulopatía bilateral suponen en torno al 10% de todos los trastornos vestibulares. Tienen unos criterios diagnósticos definidos en adultos, pero en niños adquieren importancia otros parámetros de la esfera auditiva, del comportamiento o del aparato digestivo, especialmente en niños más pequeños o con deficiencias comunicativas. La anamnesis, la exploración, las pruebas complementarias confirmatorias y su tratamiento vienen condicionados por la edad del niño. Como se describirá a lo largo de este capítulo, es imprescindible un acertado

diagnóstico precoz, que permita resolución sintomática de las crisis, prevención o reducción de recidivas, minimización y paliación de secuelas y la máxima normalización de su vida y actividad cotidiana.

Objetivo: Realizar una breve y práctica revisión sobre la clínica, los criterios diagnósticos y el tratamiento del vértigo infantil en los supuestos anteriormente mencionados.

MATERIAL Y MÉTODO

Revisión narrativa en PubMed, Fistera, ClinicalKey y Google Scholar. Descriptores utilizados: (*dizziness OR vertigo, infantile*) AND (*trauma OR head trauma*) AND (*child* OR infant* OR pediatr**). (*Dizziness OR vertigo, infantile OR vertigo*) AND (*otitis OR cholesteatoma*) AND (*child*OR infant**

*OR pediatr**). (*Dizziness OR vertigo, infantile OR vertigo*) AND (*neuritis OR labyrinthitis OR vestibul**) AND (*child*OR infant* OR pediatr**). (*Dizziness OR vertigo, infantile OR vertigo*) AND (*perilymphatic fistula OR Meniere OR parox* OR positional OR vestibulopathy*) AND (*child*OR infant* OR pediatr**). Lenguaje natural.

RESULTADOS

Se consideraron 60 trabajos tras desecharse aquellos no significativos por su carácter general, antigüedad, no relevancia a criterio de los autores o no disponibilidad en inglés o castellano. (Tabla 1, Anexo 1).

DISCUSIÓN

1. VÉRTIGO INFANTIL POR TRAUMATISMOS CRANEALES (VIT)

Definición

Vértigo o vestibulopatía inducida por traumatismo directo o transmisión de energía al vestíbulo (peloteo cefálico-cerebral) afectando estructuras cerebrales, cerebelosas (vértigo central), y/o uno o ambos nervios vestibulares, utrículo, sáculo o los canales semicirculares (CS). En estos últimos casos se producirá una vestibulopatía con o sin fractura de peñasco. Pueden existir lesiones en el oído interno sin signos radiológicos (conmoción o contusión laberíntica), o existir fracturas con destrucción del vestíbulo [1].

Clínica

El VIT puede asociar síntomas neurológicos, como cefalea, confusión, problemas de memoria y dificultad para concentrarse; dificultad para caminar o mantener el equilibrio, cambios de comportamiento y estado de ánimo; hipoacusia conductiva (HC) (afectación timpanoosicular) y/o neurosensorial (HNS) e hiperacusia vestibular (el cerebro interpreta como sensación de movimiento los sonidos demasiado fuertes) [1].

Por la afectación vestibular el niño tendrá sensación de movimiento rotatorio, náuseas, vómitos, mareo, inestabilidad o desequilibrio, que le hacen permanecer quieto y evitar moverse en lo posible. Son factores de mal pronóstico la HNS y la presencia de parálisis facial (contusión laberíntica o fractura).

Diagnóstico

El diagnóstico del VIT es difícil si no se presentó el traumatismo. La anamnesis debe obtenerse, frecuentemente, de los cuidadores, aunque depende de la edad del niño.

La exploración incluye inspección y otoscopia (otohematoma, otorragia, otoliquorra, hemotímpano, escalón), estudio audiológico y exploración otoneurológica adaptada a la edad, si es posible con gafas de Frenzel [2].

Podemos confirmar déficit vestibular con pruebas según la edad y disponibilidad (Figura.1).

Indicaremos pruebas de imagen [3], como la resonancia magnética (RMN) y la Tomografía Axial Computarizada (TAC), cuando detectemos otorragia u otoliquorra, parálisis facial, pérdida de consciencia, traumatismos de alta energía (otras fracturas asociadas) (Figura 2).

Tratamiento

Los casos leves pueden no requerir tratamiento y remitir por sí solos. En casos más graves: tratamiento sintomático (antihistamínicos, anticolinérgicos, sedantes vestibulares); corticoterapia y rehabilitación vestibular para mejorar confianza, equilibrio y coordinación (Tabla 2, Anexo 2). (ver capítulo).

Pronóstico

Depende de la gravedad del traumatismo y del grado de daño causado al cerebro y al oído interno. Son factores de mal pronóstico pérdida prolongada de consciencia, la parálisis facial, la otorragia abundante o la otoliquorra. La mayoría de las veces, el vértigo puede ser temporal y desaparecer en



Figura 1. Pruebas para exploración vestibular propuestas según la edad: cVEMP (potenciales evocados vestibulares miógenos cervicales), oVEMPS (potenciales evocados vestibulares miógenos oculares), VNG (videonistagmografía), VHIT (Video Head Impulse Test), VST (Vertical Subjective Test). DHI (Dizziness Handicap Index). SHIMP (Paradigma de supresión del impulso cefálico), fHIT (Prueba de impulso cefálico funcional).



Figura 2. Corte coronal de peñascos de un niño de 3 años de edad con traumatismo de cráneo y fractura oblicua del temporal derecho.

cuestión de días o semanas. A veces el vértigo puede ser permanente y requerir tratamiento a largo plazo. Es importante que los niños sean evaluados y tratados adecuadamente para minimizar el riesgo de complicaciones y secuelas [4].

Conclusiones

El VIT es un trastorno neurológico que puede repercutir en la calidad de vida y en la capacidad para realizar actividades diarias. Es importante detectar los síntomas de vestibulopatía.

Un diagnóstico y tratamiento adecuados controlan síntomas y minimizan el impacto a largo plazo en la salud.

La terapia de rehabilitación vestibular parece útil para ayudar al niño a recuperar su equilibrio

y coordinación, y ganar confianza para su recuperación.

2. OTITIS MEDIA

OTITIS MEDIA AGUDA (OMA)

Definición

Presencia de líquido en oído medio con signos y síntomas de inflamación aguda (hiperemia timpánica intensa, otalgia y abombamiento timpánico) [5].

La etiología más frecuente es vírica [6]. *Haemophilus influenzae* no tipable, *Streptococcus pneumoniae* y *Moraxella catarrhalis* son las principales bacterias implicadas [7]. La afectación del laberinto por filtración de bacterias o sus toxinas a través de las ventanas naturales del oído supone una complicación del proceso.

Clínica

Vértigo sobreañadido a los síntomas de la OMA [8]. HNS.

Diagnóstico

Otoscopia Exudado de oído medio.

Nistagmo ipsilateral en fase irritativa de laberintitis serosa o deficitario en laberintitis supurativa.

AudiometríaHipoacusia neurosensorial o mixta.

Pruebas de Imagen: TAC y/o RMN (lesiones petrosas y afectación coclear).

Tratamiento

Sintomático

Antibioticoterapia oral en función de la edad, la gravedad de los síntomas o sospecha etiológica [5, 9].

En la OMA complicada con laberintitis, tratamiento hospitalario con Ceftriaxona, corticosteroides sistémicos y miringotomía con tubo de drenaje transtimpánico. Tratamiento sintomático (Tabla 2, Anexo 2).

Pronóstico

Resolución espontánea sin secuelas en OMA no complicada (60%).

Recuperación de la clínica auditiva y vestibular en OMA con laberintitis serosa.

Hipoacusia parcial o cofosis en OMA con laberintitis supurada [6].

Otitis media crónica (OMC) [9-11].

OMC seromucosa (OSM).

Presencia de derrame inflamatorio en el oído medio, más de 3 meses tras OMA. Bilateral 85%.

El derrame es exudado inflamatorio con leucocitos, moco, enzimas y restos bacterianos. Es estéril en >50% (cuando se demuestran microorganismos, son los patógenos clásicos de las OMA).

Las infecciones producen proliferación de células mucinosas caliciformes y de glándulas submucosas (en detrimento de las células ciliadas).

Clínica: HC y sensación de líquido. Infrecuente afectación vestibular, generalmente leve y transitoria. Considerar drenaje transtimpánico si laberintitis.

OMC adhesiva y OMC atelectásica.

Suponen adelgazamiento y retracción timpánica con caja del tímpano reducida a un espacio virtual, con la membrana timpánica adherida o no a pared medial de caja timpánica. Complica un 3% de las OMC. Excepcionalmente afectan vestíbulo. Su tratamiento, si precisara, sería quirúrgico (drenajes transtimpánicos, timpanoplastia) y sintomático. (Tabla 2, Anexo 2).

OMC hipertrófica o supurativa.

Persistencia de la inflamación y/o infección del oído medio con hipertrofia mucosa a tímpano cerrado o con emisión otorreica a través de una perforación timpánica traumática o secular de OMA. Los microorganismos más comunes son *Pseudomonas aeruginosa* y *Staphylococcus aureus*. El tratamiento médico es empírico para erradicar

la infección. En los casos refractarios timpanomastoidectomía. Pueden afectar de forma aguda o crónica al oído interno y producir laberintitis aguda o crónica. (ver)

OMC colestomatosa.

Presencia congénita o adquirida de epidermis descamativa, erosiva y migrante en el interior del oído medio. Agresiva en niños, con recidivas (40%).

Clínica: otorrea purulenta fétida, hipoacusia unilateral y otorragia.

Ocasionalmente, laberintitis por invasión, inflamación o sobreinfección directa (*Pseudomonas aeruginosa* y *Staphylococcus aureus*) o secundaria a complicación infecciosa endocraneal.

Diagnóstico

Otoscopia: Demuestra colesteatoma.

Exploración: Propia de la laberintitis aguda o crónica (ver).

Signo de la Fístula: nistagmo provocado por la presión sobre el trago o por hiperpresión realizada con un espéculo neumático. El nistagmo desencadenado suele ser horizontal y bate hacia el oído explorado.

Acumetría y audiometría: HC. Posible componente HNS (sugiere laberintitis).

TAC: diagnóstico de extensión, planificación quirúrgica y estudio de complicaciones laberínticas y endocraneales. Demuestra fístula.

Reducción del Reflejo Vestíbulo-ocular (RVO): Video Head Impulse Test (VHIT): ganancias reducidas principalmente en CS-Horizontal con sacadas. Déficit calórico con asimetría mayor a 25% respecto a contralateral (no siempre factible).

Tratamiento

Si laberintitis aguda: Farmacológico (sintomático-antibiótico-corticoide. Cirugía precoz (Tabla 2, Anexo 2).

Si crónica: Timpanoplastia con o sin sellado de fístula.

Conclusión

La laberintitis es una complicación infrecuente de las OM en el niño, que debe sospecharse ante sintomatología compatible.

3. NEURITIS VESTIBULAR / NEUROPATÍA AGUDA UNILATERAL (NV)

Definición

Vértigo episódico único por inflamación del nervio vestibular superior, el inferior o ambos, originando un déficit vestibular periférico agudo. Etiología principalmente vírica. Está demostrada la relación con herpesvirus Su desencadenante parece ser la rinofaringitis. Se han descrito casos con la infección y tras la vacunación por Coronavirus, incluso en pacientes asintomáticos.

Prevalencia estimada en 1-5% de todos los cuadros vestibulares infantiles [12-15].

Clínica

Intensa sensación brusca de giro de objetos, desequilibrio y náuseas sin hipoacusia. En niños pequeños puede acompañarse de abdominalgia o vómitos y confundirse con una gastroenteritis [13].

Diagnóstico

Criterios de la Sociedad Bárány [16] (Tabla 3).

El diagnóstico es clínico. Vértigo intenso brusco y nistagmo espontáneo horizonte-rotario hacia el vestíbulo sano, de magnitud creciente conforme se mira en ese sentido, que disminuye con fijación de mirada, con Romberg y Bárány hacia el lado deficitario. Reducción del RVO clínico (HIT, *Head Shaking Test* (HST)) y en pruebas vestibulares dependiendo de la edad del niño y su colaboración (Figuras 1 y 3) [17].

Como la exploración neurológica es normal, las pruebas de imagen no son imprescindibles [13].

Tratamiento

Tratamiento sintomático, antiinflamatorio y etiológico (herpesvirus) (Tabla 2, Anexo 2).

Tabla 3. Criterios diagnósticos de neuritis vestibular/ vestibulopatía aguda unilateral. Sociedad Bárány [16].

A) Inicio agudo o subagudo de vértigo giratorio o no giratorio sostenido (es decir, un síndrome vestibular agudo) de intensidad moderada a grave con síntomas que duran al menos 24 horas.
B) Nistagmo vestibular periférico espontáneo con una trayectoria adecuada a los aferentes del canal semicircular involucrado, generalmente horizontal-torsional, de dirección fija e incrementado por la eliminación de la fijación visual.
C) Evidencia inequívoca de función RVO reducida en el lado opuesto a la dirección de la fase rápida del nistagmo espontáneo.
D) No evidencia de síntomas neurológicos, otológicos o audiológicos centrales agudos.
E) Ausencia de signos neurológicos centrales agudos (signos motores oculares centrales o signos vestibulares centrales, en particular, desviación oblicua pronunciada, nistagmo provocado por la mirada,) y signos audiológicos u otológicos agudos.
F) No se explica mejor por otra enfermedad o trastorno.

Es importante comenzar con la rehabilitación vestibular de manera precoz con juegos adaptados a la edad del paciente para compensar más rápidamente.

Se realiza maniobra de Epley en los casos asociados a VPPB. El uso de corticoides no está generalizado. Recomendado en adolescentes por su mayor tasa de síntomas residuales [12].

Pronóstico

La clínica dura unos diez días, recuperándose el 90% de los niños [13]. Los más pequeños presentan mayores tasas de recuperación completa y más de la mitad (57%) de los adolescentes tienen recuperación incompleta con mareo residual hasta un mes después del inicio de los síntomas, como ocurre en los adultos. La incidencia de VPPB secundario a NV parece ser mayor que en adultos [12].

Conclusiones

Debemos sospechar NV ante vértigo de inicio brusco en el contexto de un cuadro catarral.

Rehabilitación vestibular precoz.

4. LABERINTITIS

Definición

Vértigo intenso y brusco con síntomas auditivos derivado de la afectación del laberinto. Según la gravedad podemos clasificarla en perilabirintitis, labirintitis serosa (inflamatoria), labirintitis supurativa y neurolabirintitis [18].

Es una complicación de una infección cercana: (otitis, mastoiditis, meningitis o cerebritis, o varias de éstas a la vez). Las bacterias o sus toxinas se filtran por las ventanas redonda u oval. Ocasionalmente se demuestra una fistula perilinfática [19, 20]. En la neurolabirintitis la infección proviene del endocráneo (meningitis, cerebritis, etc...) suponiendo especial gravedad por la enfermedad primaria.

Clínica

Vértigo, HNS y acúfenos, más graves en la labirintitis supurativa (hipoacusia rápidamente progresiva, plenitud ótica, vértigo intenso y nistagmo primero irritativo y posteriormente deficitario) [18]. Generalmente se asocia a una OMA (fiebre y otodinia), pero también puede ser complicación de una OMC. En la OMC colestomatosa el vértigo puede ser el primer síntoma. La OMA puede producir una fibrosis extensa del oído interno seguida de osificación [13] provocando HNS y figuras (ver).

Diagnóstico

Otoscopia, exploración vestibular (síndrome armónico y HST-HIT positivo; en las formas serosas, en fase irritativa, puede observarse nistagmo ipsilateral) audiometría (HN o mixta) y pruebas de imagen. Pruebas vestibulares según edad (Figuras 1 y 3).

En la fase aguda, la RMN-T1gadolinio presenta realce laberíntico, hallazgo especialmente relevante en las formas serosas, en las que la clínica no es tan florida. El TAC demuestra las complicaciones (fístula laberíntica, mastoiditis abscesos endocraneales) y, posteriormente, permite conocer la extensión de la osificación laberíntica secuelar [20].

CAUSAS DE VÉRTIGO PERIFÉRICO EN LA INFANCIA
 COSCARÓN-BLANCO E, SANTOS-GORJÓN P, PÉREZ-LIEDO MC ET AL.

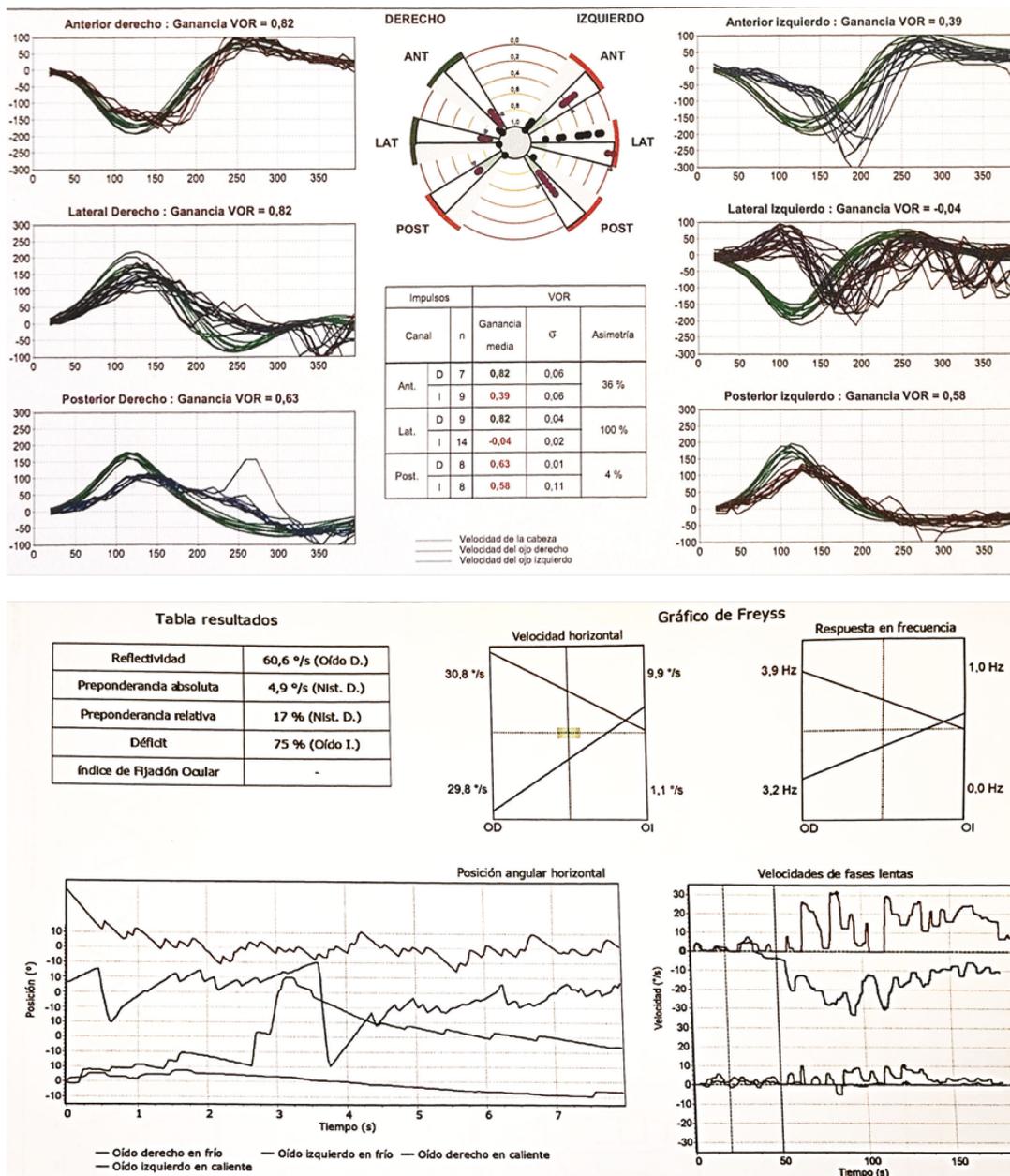


Figura 3. Hallazgos típicos de neuritis vestibular izquierda en VNG y VHIT. Observable en otras causas de vestibulopatía aguda izquierda y laberintitis.

Tratamiento

Similar a la neuritis (Tabla 2, Anexo 2).

Miringotomía para drenar el pus y tomar cultivo si OMA.

Antibiótico sistémico de amplio espectro prolongado.

Cirugía si colesteatoma o absceso mastoideo.

Adaptación audioprotésica o implante coclear de *array* simple o doble según hipoacusia y osificación coclear. Rehabilitación vestibular.

Pronóstico

La patología vestibular puede recuperarse o compensarse. La hipoacusia puede persistir parcial o totalmente o evolucionar a cofosis (laberintitis supurada) [18, 20].

Conclusiones

Sospecharemos laberintitis ante vértigo agudo, hipoacusia e infección concomitante.

Las pruebas de imagen caracterizan complicaciones vestibulares de las otitis.

El vértigo desaparece, pero la hipoacusia y la vestibulopatía secular pueden ser irreversibles.

5. FISTULA PERILINFÁTICA (FP)

Definición

Comunicación anormal con el espacio perilinfático por alteración laberíntica o de la cápsula ótica, ocasionando fuga de perilinfa hacia el oído medio [21]. Las FP secundarias a anomalías congénitas suponen el 6% de las HNS idiopáticas infantiles [22].

Clínica

La FP se incluye en las patologías que cursan con crisis de vértigo recurrente con HNS [23].

Se caracteriza por episodios de vértigo o desequilibrio con HNS fluctuante y progresiva con antecedentes de malformaciones de oído medio-interno, traumatismos craneales o cirugía con manipulación sobre ventana oval o redonda [21, 23].

Sin embargo, en niños las manifestaciones clínicas son diferentes a las del adulto como consecuencia de la inmadurez del sistema vestibular y de los procesos de adaptación [21], lo cual dificulta el diagnóstico.

Diagnóstico

Criterios diagnósticos (Tabla 4).

El diagnóstico de FP es difícil debido a su variabilidad clínica y similitud con otros procesos como la enfermedad de Ménière o el síndrome de dehiscencia de canal semicircular superior. Debe sospecharse ante síntomas audiovestibulares inespecíficos refractarios a los tratamientos habituales, sobre todo si hay antecedentes de traumatismo o cirugía otológica [24].

Es fundamental realizar estudios audiométricos seriados según edad, para demostrar la hipoacusia fluctuante [21]. La maniobra de Valsalva puede ser de utilidad en adolescentes y niños mayores colaboradores. Se considera positiva si al realizarla aparece clínica vertiginosa y/o nistagmo (signo de Hennebert). Una maniobra de Valsalva positiva orienta hacia FP o dehiscencia de los conductos semicirculares, pero también puede ser positiva en anomalías de la unión craneocervical y otras alteraciones de oído medio o interno [25]. De hecho, se ha descrito una baja sensibilidad y especificidad del test, con un 40% de falsos positivos [21].

Aunque el diagnóstico de confirmación es a través de la visualización directa de la fistula, las pruebas de imagen actuales (TAC de alta resolución y/o RMN) pueden orientar. Los hallazgos radiológicos sugerentes de FP son la presencia de neumolaberinto o de líquido en la ventana oval y/o redonda [24].

Sarna *et al* proponen un algoritmo diagnóstico indicando exploración quirúrgica del oído en casos de sospecha clínica con antecedentes de barotrauma o traumatismo directo del oído, optando, en ausencia de traumatismo, por realizar primero estudios de imagen [24].

Tabla 4. Criterios diagnósticos de fístula perilinfática [24].

Fístula perilinfática definida	<p>Pérdida auditiva fluctuante o no fluctuante, tinnitus, plenitud auditiva y/o síntomas vestibulares inmediatamente precedidos por uno de los siguientes eventos:</p> <ol style="list-style-type: none"> 1. Barotrauma causado por eventos externos (p. ej., bofetada/succión en el oído, traumatismo craneoencefálico, explosión, paracaidismo, submarinismo o vuelo, etc.). 2. Barotrauma causado por eventos internos (p. ej., sonarse la nariz, estornudar, esforzarse o levantar objetos pesados, etc.). 3. Traumatismo directo en el oído interno (p. ej., lesión del hisopo, operación de estapedotomía, fractura del hueso temporal, etc.). <p>Y que cumple con uno de los siguientes criterios:</p> <ol style="list-style-type: none"> A. Pruebas de laboratorio para un biomarcador de perilinfa con alta sensibilidad y especificidad. B. Observación de fuga perilinfática en el oído medio y resolución de los síntomas después del tratamiento con parche sanguíneo intratimpánico o taponamiento quirúrgico de la fuga.
Fístula perilinfática probable	<p>Pérdida auditiva fluctuante o no fluctuante, tinnitus, plenitud auditiva y/o síntomas vestibulares sin antecedentes como los descritos anteriormente, con anomalías de la tercera ventana y falta de respuesta al estilo de vida, la dieta y la terapia de profilaxis de la migraña, y con resolución de los síntomas después del tratamiento con parche de sangre intratimpánico o taponamiento quirúrgico de la fuga.</p>

Tratamiento

Cirugía de sellado, que, además, nos permite demostrar la fístula. En casos seleccionados podría plantearse una actitud conservadora (fístulas de origen desconocido y sintomatología leve) [24]. Durante la timpanotomía exploradora, suele ser necesario inducir un aumento de presión intratorácica para observar la salida de perilinfa. Es fundamental comprobar que no existen otras malformaciones [21]. Se suele realizar un sellado de ambas ventanas con fascia temporal o pericondrio tragal [24].

Pronóstico

El sellado quirúrgico promueve estabilización auditiva y control de síntomas auditivos [21]. Reilly reportó estabilización de la audición en el 71% de sus pacientes pediátricos, mejoría en el 13% y progresión en el 15% restante [22]. Cuanto más precoz sea el tratamiento, mayor será la posibilidad de controlar el déficit auditivo.

Conclusiones

La FP es una entidad de identificación difícil por su variabilidad clínica que debemos incluir en

el diagnóstico diferencial de las HNS que cursan con vértigo en la infancia. La anamnesis y exploración clínica minuciosas, acompañadas de pruebas audiométricas y vestibulares adaptadas a la edad del paciente, son orientadoras. El diagnóstico y tratamiento precoces pueden controlar la sintomatología y frenar el deterioro auditivo.

6. ENFERMEDAD DE MÉNIÈRE (EM)

Definición

Enfermedad definida por crisis recurrentes de vértigo espontáneo de 20 minutos hasta 12-24 horas de duración, con HNS documentada, afectando predominantemente frecuencias graves antes, durante o después del ataque de vértigo en el oído afecto. Puede presentar fluctuaciones auditivas, plenitud, taponamiento y síntomas vegetativos. Supone un 1,5% de los diagnósticos de vértigo infantil. Existen cinco subtipos (clásico, asociado a migraña, familiar, autoinmune y diferido). Puede ser bilateral [26-29].

Clínica

Además de los previos, sintomatología afectiva, cefalea y empeoramiento del rendimiento escolar

y esfera sociofamiliar. Ocasionalmente vómitos cíclicos.

Diagnóstico

Criterios de la Sociedad Bárány [5,28,30] (Tabla 5).

La exploración intercrítica puede ser anodina, o mostrar déficit vestibular unilateral (HIT, VIN, HST). Deben realizarse otoscopia, exploración neurológica básica y exploración del Reflejo Vestíbulo Espinal (RVE) en bipedestación o sentado según edad y desarrollo.

En las crisis, generalmente exploradas en fase deficitaria, observamos nistagmo horizontorrotatorio periférico al lado sano (al patológico en fase irritativa), y desviaciones corporales estáticas o dinámicas, globales o segmentarias al lado afecto. En niños más pequeños esta exploración, difícil, debe realizarse sentado.

Audición normal o HNS (20%). Fluctuaciones.

Reducción del RVO durante la crisis o deficitaria permanente según edad (2-20%) [29, 31, 32, 33] (Figura 2).

RMN: normal o dilatación del oído interno. Incremento en la razón de intensidad de señal entre ambas espiras basales y correlación grado de afectación coclear y vestibular. Hydrops grado II en RMN, preponderancia nistágmica e hiporreflexia

vestibular son predictores independientes de EM definitiva [28, 34, 35].

Tratamiento [26, 28, 36, 37]

Objetivos

Tratar el episodio agudo. Revertir síntomas.

Prevenir o reducir número de ataques y su gravedad.

Mejorar calidad de vida del niño y padres.

Para cumplirlos, se proponen diversos abordajes.

- a) Farmacológico, diferenciando periodo crítico o intercrítico. (Tabla 2, Anexo 2)
- b) Hábitos saludables de vida, descanso nocturno, limitación del estrés, nutrición sana sin aditivos, modificación en la hidratación, evitar caféina, etc...
- c) Control comorbilidades.
- d) Coadyuvantes: ansiolíticos o antidepresivos.
- e) Cognitivo: Psicoterapia e información a cuidadores, padres y al propio niño según madurez, contribuirá a mejor cumplimiento del plan terapéutico, reducción de la incertidumbre y el estrés y permitirá estrategias de reacción adecuadas ante las crisis.
- f) En casos refractarios: corticoterapia transtimpánica (dexametasona 4mg/ml)

Tabla 5. Criterios diagnósticos de enfermedad de Ménière [4,16,5]. Sociedad Bárány. Criterios de reducción del RVO [30].

1-Enfermedad definida:	A-Dos o más ataques de vértigo de 20 minutos a 12 horas de duración. B-Hipoacusia neurosensorial documentada al menos una vez en frecuencias graves-medias antes, durante o después de vértigo en oído afecto. (adaptada a edad) C-Síntomas auditivos fluctuantes en el oído afecto (tinnitus, plenitud, hipoacusia) D-Sin otra causa vestibular que lo justifique mejor.
2-Enfermedad probable:	A-Dos o más ataques de vértigo de 20 minutos a 24 horas de duración. C-Síntomas auditivos fluctuantes en el oído afecto (tinnitus, plenitud, hipoacusia) D-Sin otra causa vestibular que lo justifique mejor.
Reducción del RVO crítica o permanente	1-Reducción reflectividad térmica en el calorigrama. Diferencia de 25% en comparación entre ambos vestíbulos. 2-Reducción de ganancia del RVO < 0.70 en VHIT con sacadas a veces bilaterales. 3-Disociación; vestibulopatía por calorigrama con normalidad o casi normalidad VHIT. 4-Alteraciones electrococleográficas (SP/AP >0.4). Sensibilidad y valor variables. 5-Nistagmo crítico de alta velocidad y cVEMP asimétrico.

o selectivamente, procedimientos ablativos del vestíbulo (instilación de gentamicina transtimpánica, *gelfoam* empapada en gentamicina colocada en ventana redonda o cirugía).

- g) Rehabilitación vestibular individualizada, adaptada a la edad. Es bien aceptada y tolerada. Contribuye a un mejor desempeño. Fomentaremos actividad cotidiana (caminar), deporte seguro en diferentes ambientes, condiciones y superficies. (Ver capítulo)
- h) Adaptación audioprotésica o implante coclear según indicación.

Pronóstico

Variable. Depende de la intensidad y frecuencia de las crisis, de las disfunciones secundarias, del cumplimiento terapéutico y del soporte familiar.

El diagnóstico y tratamiento precoces permiten mayor normalización vital y reducen los síntomas no audiovestibulares.

Conclusiones

Diagnóstico infrecuente.

Presenta clínica audiovestibular y afectiva, con merma del rendimiento escolar y desempeño lúdico-social y es fuente de ansiedad familiar.

Requiere un tratamiento multifocal.

7. PAROXISMA VESTIBULAR (PV)

Definición

Enfermedad descrita por Brandt y Dieterich en 1994, caracterizada por crisis vertiginosas espontáneas de repetición de corta duración (< 1 minuto) [38].

Su prevalencia es del 4%, similar a la del adulto [39]. En 400 niños y adolescentes menores de 20 años atendidos en una clínica especializada en vértigo y trastornos del equilibrio en un periodo de 10 años, 25 cumplen estrictamente los criterios

definitivos o probables de adultos para PV presentándose con crisis repetidas y frecuentes de duración inferior a un minuto [41, 42].

La causa de la PV se atribuye a un cruce vascular que genera fenómenos compresivos irritativos en la zona de entrada del VIII par craneal [40].

Clínica

Crisis vertiginosas espontáneas de repetición de corta duración (< 1 minuto). Su baja prevalencia, conlleva escasa descripción de casos clínicos y, consecuentemente, un retraso diagnóstico importante de varios meses desde el inicio de los síntomas.

Diagnóstico

Criterios de la Sociedad Bárány [43]. (Tabla 6)

No incluido en los criterios diagnósticos: vértigo y nistagmo provocado por hiperventilación, demostrable por VNG en el 70% de los casos [39].

Solamente la mitad de los pacientes presentan alguna alteración leve de pruebas vestibulares y audiológicas, siendo así imposible determinar el lado de la lesión en muchos casos [43].

La RM cerebral es obligatoria para descartar otras causas compresivas o tumorales. La propia compresión del VIII par no siempre es demostrable en la imagen. Su sensibilidad y especificidad son cercanas a 100% y 65% respectivamente. Esta diferencia está basada en controles en pacientes sanos asintomáticos donde también se pueden evidenciar compresiones neurovasculares por imagen [44].

Diagnóstico diferencial

En ataques de corta duración: crisis otolíticas de Tumarkin, ataques isquémicos transitorios del tronco cerebral, fistula perilinfática, epilepsia.

En crisis de duración mayor, considerar migraña vestibular o enfermedad de Ménière.

Tratamiento

Electivamente Carbamacepina 2-4mg/kg/día u oxcarbacepina 8-10 mg/kg/día (Tabla 2, Anexo 2).

Tabla 6. Criterios diagnósticos de Paroxismia vestibular [43].

1-Enfermedad definida (Debe cumplir TODOS los criterios)	A- Al menos 10 ataques de vértigo rotatorio espontáneo o no rotatorio. B- Duración menor a 1 minuto. C- Fenomenología estereotipada en un paciente particular D-Respuesta al tratamiento con carbamacepina. E-No se explica mejor por otro diagnóstico.
2-Enfermedad probable (Debe cumplir TODOS los criterios)	A- Al menos 5 ataques de vértigo rotatorio o no rotatorio. B- Duración menor a 5 minutos. C- Inicio espontáneo o provocado por movimientos de cabeza. D- Fenomenología estereotipada en un paciente particular. D-No se explica mejor por otro diagnóstico.
Otros criterios accesorios [39]	Vértigo y nistagmo provocado por hiperventilación, demostrable por VNG.

Lacosamida ante intolerancia (2-4 mg/kg/día) [45].

Estas dosis son inferiores a las dosis terapéuticas para otras patologías como la epilepsia, lo que justifica incluso su uso ante la sospecha de una paroxismia vestibular.

Si es efectiva, continuar hasta estado asintomático durante al menos 3 meses, al igual que en el esquema terapéutico del adulto [39].

Las técnicas quirúrgicas descompresivas no suelen indicarse puesto que responden generalmente bien al tratamiento.

Pronóstico

La PV tiene buen pronóstico a largo plazo con remisión espontánea con la edad [46].

El crecimiento de estructuras vasculares, cerebrales y óseas, variables en velocidad entre niños, explicaría que algunos se resuelvan espontáneamente [41].

Conclusiones

Es un cuadro vertiginoso breve muy repetitivo, con baja incidencia, lo que dificulta y retrasa el diagnóstico.

Clínicamente no difiere del adulto.

Ante la sospecha se justificaría el tratamiento con carbamacepina ajustada al peso.

Buen pronóstico con remisiones espontáneas.

8. VÉRTIGO POSICIONAL PAROXÍSTICO BENIGNO (VPPB)

Definición

Síndrome vestibular episódico de carácter paroxístico de breve duración. Se caracteriza por un nistagmo desencadenado por la estimulación anormal que provocan las otoconias en el conducto semicircular implicado [47]. Incidencia 9,5/100.000/año frente a 171.5/100.000/año en adultos [48].

Clínica

Sensación de giro desencadenada por ciertos movimientos o posiciones cefálicas, con o sin náuseas, vómitos, sudoración y desequilibrio. Pueden ser más intensos cuando el niño está acostado o cuando agacha la cabeza. Puede sufrir una sensación de balanceo durante los episodios. Conductas evitacionales, miedos y negativa a ciertas actividades catalogadas como rebeldía, con frecuente infradiagnóstico [49, 50].

Diagnóstico [47-53]

Se basa en las pruebas de provocación y en el nistagmo típico observado. El CS más afectado es el posterior; sin embargo, son más frecuentes la afectación del horizontal, anterior, multicanal y bilateralidad que en adulto. Puede asociarse

con migraña vestibular y traumatismos. Existen extensos monográficos para profundizar en su diagnóstico y tratamiento.

Tratamiento [49, 51, 53]

Maniobras específicas según canal, pudiendo requerir varias realizaciones o combinación.

El tratamiento en niños muy pequeños puede realizarse sentado sobre un adulto y con movimientos en tándem.

Pronóstico favorable [49, 51, 53].

9. VESTIBULOPATÍA BILATERAL (VPB)

Definición

Síndrome vestibular crónico con disminución o abolición de la función de ambos órganos vestibulares, de los nervios vestibulares o de ambos [17, 54]. Diversa etiología (Tabla 6).

Clínica

Los síntomas para enfermedad definida y probable de VPB han sido establecidos por la Bárány Society (Tabla 7). Síntomas asociados secundarios: alteraciones del control de postura y equilibrio, orientación en el espacio, navegación, coordinación motora, percepción corporal, desarrollo afectivo-cognitivo y control autónomo [17, 55, 56].

Antes del nacimiento, y durante el primer mes de vida, se desarrollan la integración multisensorial, los reflejos posturales básicos, la coordinación motora y la estabilidad de la mirada. Se produciría, por tanto, hipotonía y un retraso en la verticalización que afecta la sedestación, la bipedestación y la adquisición de la deambulación en bipedestación [55].

Mareo, desequilibrio postural e inestabilidad en la marcha. Choques constantes con objetos estáticos y tropezones.

Tabla 7. Etiología de la vestibulopatía bilateral infantil [54, 60].

Idiopático (35%)	
Toxico metabólica (13-21%)	Antibióticos (aminoglucósidos, macrólidos), Diuréticos ASA (furosemida, torasemida), Quimioterápicos (cisplatino, carboplatino, mecloretamina), Polimixina B, Antipalúdicos, Aspirina, alcohol, deficiencia de vitamina B 12, deficiencia de ácido fólico, diabetes mellitus, hipotiroidismo, envenenamiento por estireno, combinación de medicamentos antiinflamatorios no esteroideos más penicilina. Radiación craneal.
Infecciosa (3,8-12%)	Meningitis / encefalitis / cerebritis, lúes (incluida congénita), infección por Borrelia, infección por el virus del herpes simple, CMV, VIH, sepsis.
Autoinmune (10%)	Síndrome de Cogan, síndrome de Susac, sarcoidosis, granulomatosis de Wegener, síndrome de Sjögren, colitis, enfermedad celíaca, poliarteritis nodosa, síndrome antifosfolípido, enfermedad de Bechet, lupus eritematoso sistémico.
Neurodegenerativas	Ataxia episódica, polineuropatía, ataxia espinoocerebelosa infantil, neuropatía hereditaria sensorial y autonómica tipo IV, otras ataxias
Congénita no sindrómica	DFNA-9, DFNA-11, DFNA-15, DFNB-4, mutación cromosómica 5q, 6q, 11q, 22q
Vascular	Lesiones supra o infratentoriales, dolicoectasia vertebrobasilar
Neoplásica	Schwannoma vestibular, neurofibromatosis tipo 2, metástasis de linfoma, tumor maligno
Traumática	Traumatismo craneoencefálico iatrogénico (p. Ej., Implante coclear) Síndrome de aceleración-desaceleración.
Otra patología del oído	OSM grave bilateral crónica, enfermedad de Ménière.
Congénita Sindrómica	CHARGE, Usher, Turner, acueducto vestibular dilatado, síndrome de Alport,
Otros	Clasificación de Sennaroglu de las malformaciones del oído interno

La alteración de la estabilidad visual especialmente en movimientos de alta frecuencia produce oscilopsia y la disminución de la agudeza visual dinámica origina dificultades en la adquisición de la lectura y la escritura [55, 57, 58].

Déficits cognitivos: Existe fatiga que reduce su capacidad de concentración dificultando el aprendizaje, con bajo rendimiento escolar e incluso discapacidad intelectual secundaria [55].

Síntomas psicológicos y psiquiátricos: El desequilibrio crónico produce cambios de conducta como evitación de juegos y actividades, miedos situacionales y aislamiento social. Asociación de una mayor incidencia de comorbilidades psiquiátricas [55, 56, 57].

Dificultad para el desarrollo de las habilidades motoras gruesas.

Síntomas autónomos: hiperémesis, cinetosis.

HNS: VPB sin pérdida auditiva asociada es infrecuente (50% niños con HNS presentan vestibulopatía) (ver capítulo) [57,59].

Otros síntomas: la cefalea es un síntoma común en el entorno escolar de estos pacientes [58].

Diagnóstico

La forma correcta de realización de estas pruebas, su interpretación y significado clínico exceden el propósito de esta revisión.

Anamnesis: los niños no saben describir los cambios corporales que experimentan por lo que

debemos obtener la información de padres y cuidadores hasta donde sea posible.

Otoscopia

Exploración neurológica y pruebas de competencia motriz. Variable entre autores. En niños menores de 5 años: PDMS-2 (Escala de desarrollo Motor Peabody). A partir de los 4 años: BOTMP (competencia Motriz de Bruininsk-Oseretsky) donde el test BOT-2 evalúa el equilibrio estático y dinámico [56].

Motilidad ocular (sacadas, seguimiento visual y fijación) y búsqueda de nistagmo espontáneo. El nistagmo optocinético está presente a partir de los seis meses y puede ser analizado con las salvedades propias de cada edad [56].

Pruebas de alta frecuencia (HIT, HST y VIN)

Si es posible por edad, valoración de la agudeza visual dinámica con disminución de más de dos líneas en la tabla de optotipos.

Exploraciones complementarias

Estudio audiométrico y vestibular según la edad, ya que las habilidades visiomotoras finalizan su desarrollo entre 14-18 años [58] (Figura 2).

La Bárány Society establece que el RVO debe estar disminuido o ausente (documentado): [17,54] (Tabla 8).

VHIT: ganancia del RVO angular horizontal bilateral <0,6 (Figura 4), y/o

Tabla 8. Criterios diagnósticos de la vestibulopatía bilateral. Sociedad Bárány [54].

Criterios diagnosticos vestibulopatía bilateral	Criterios diagnósticos vestibulopatía bilateral probable
1. Inestabilidad al caminar o estar de pie, más alguno de los siguientes puntos: <ul style="list-style-type: none"> • Visión borrosa inducida por el movimiento u oscilopsia al caminar o con movimientos rápidos de la cabeza. • Empeoramiento de la inestabilidad en la oscuridad o en terrenos irregulares. 2. No presenta síntomas sentado, acostado o en condiciones estáticas. 3. Reflejo vestibulo ocular ausente o reducido bilateralmente y documentado. 4. No se explica mejor por otra enfermedad.	1. Inestabilidad al caminar o estar de pie, más alguno de los siguientes puntos: <ul style="list-style-type: none"> • Visión borrosa inducida por el movimiento u oscilopsia al caminar o con movimientos rápidos de la cabeza. • Empeoramiento de la inestabilidad en la oscuridad o en terrenos irregulares. 2. No presenta síntomas sentado, acostado o en condiciones estáticas. 3. Prueba de impulso cefálico de cabecera bilateralmente patológico. 4. No se explica mejor por otra enfermedad.

VNG: la suma de las respuestas de cada oído, en ambas estimulaciones calóricas (estimulando con agua según normas ANSI) es inferior a 6 °/s (la suma de las 4 respuestas inferior a 12 °/s), y/o Ganancia de RVO angular horizontal reducida ≤ 0.1 con estimulación sinusoidal en una silla giratoria (0.1Hz, $V_{max}=50^\circ/\text{seg}$) y un adelanto de fase ≥ 15 grados (constante de tiempo ≤ 6 seg).

Pruebas accesorias:

- VEMPs: No se utilizan en el diagnóstico de VPB, pero sí para controlar la progresión de la enfermedad o seguimiento de respuesta al tratamiento [17, 54].
- Diagnóstico etiológico: Pruebas en función del diagnóstico etiológico [17,57,60] (Tablas 4 y 7) Estos criterios, establecidos para el adulto, deben matizarse en el niño. El cribado vestibular del recién nacido no está generalizado (ver capítulo).

Tratamiento

Diagnóstico preciso y precoz: evita agravamiento si noxa actúa prolongadamente en el tiempo. Tratamiento etiológico. Comprensión de la enfermedad. Resolver incertidumbre.

Rehabilitación vestibular precoz, personalizada y activa, involucrando a padres y cuidadores. Principios de adaptación y estabilización visual con movimientos cefálicos voluntarios-sustitución y estabilización visual en el objetivo-habituaación a los movimientos o situaciones. Realidad virtual. En niños aporta aspecto lúdico y llamativo que permite cumplimiento. Fisioterapia.

Cambios en estilos de vida. Consejo situacional. Evitar alturas, situaciones de riesgo o conflicto visual. Precaución con superficies resbaladizas. Elección adecuada de medio de transporte. Estrategias vitales.

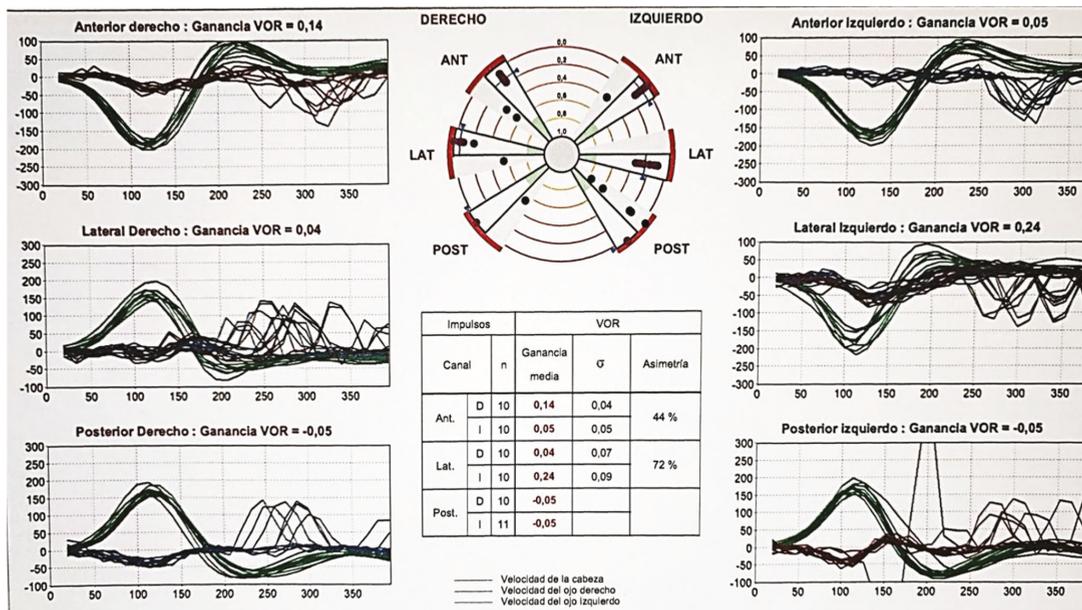


Figura 4. Hallazgos VHIT de vestibulopatía bilateral.

Dirección emocional y conductual. Manejar estrés, cansancio, sobrecarga ambiental, poblacional o dificultades.

Tratamiento de la hipoacusia.

Pronóstico

Dada la plasticidad neural de los niños, tanto mayor cuanto más pequeños son, el pronóstico de una posible rehabilitación vestibular es mejor que en adultos. Promueve la compensación central. Mejora su desempeño vital, social y la calidad de vida. Efectos limitados cuando existen fluctuaciones en la función vestibular y si hay hiperémesis asociada.

Conclusiones

La VPB es una enfermedad infrecuente con gran repercusión en el desarrollo del niño.

Suele asociar hipoacusia y tiene una amplia expresividad clínica que debemos conocer.

Su pronóstico es mejor que en el adulto, especialmente cuanto más precozmente se diagnostique.

CONCLUSIONES

Los criterios diagnósticos para los tópicos propuestos en este capítulo están definidos para el adulto; sin embargo, en niños, existen criterios accesorios que deben conocerse.

El tratamiento se sustenta en varios pilares (farmacológico, hábitos de vida, rehabilitación y psicológico) y está condicionado por la edad.

El pronóstico, en general, es mejor que el del adulto por la plasticidad neural infantil.

BIBLIOGRAFÍA

1. Som PM, Curtis H. Hueso temporal: traumatismos. Radiología de cabeza y cuello. Madrid. Editorial Elsevier. 2004:1230-44.
2. Frisenda JL, Schroeder JW Jr, Ryan ME, Valika TS, Billings KR. Cost effective use of audiograms after pediatric temporal bone fractures. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2015;79:1926-31. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2015.09.009>
3. Dalaqua M, do Nascimento FBP, Miura LK, Reis F, Garcia MRT, Barbosa Júnior AA. Magnetic resonance imaging of the cranial nerves in congenital, traumatic, and vascular diseases: a pictorial essay. *Radiol Bras.* 2021;54:185-92. DOI: <https://doi.org/10.1590/0100-3984.2020.0039>.
4. Zayas JO, Feliciano YZ, Hadley CR, Gómez AA, Vidal JA. Temporal bone trauma and the role of multidetector CT in the emergency department. *Radiographics.* 2011;31:1741-55. DOI: <https://doi.org/10.1148/rg.316115506>.
5. Cubero Santos A, García Vera C, Lupiani Castellanos P. Guía de Algoritmos en Pediatría de Atención Primaria. Otitis media aguda. AEPap [internet].2017 [consultado 25 abr 2023]. Disponible en <https://algoritmos.aepap.org/adjuntos/oma.pdf>.
6. Krause FJ. Otitis Media Aguda. Diagnóstico y manejo práctico. *Revista Médica Clínica Las Condes.* 2016;27(6):915-23. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.rmcl.2016.10.004>.
7. López Martín D, Piñeiro Pérez R, Martínez Campos L, Ares Álvarez J, de la Calle Cabrera T, Jiménez Huerta I et al. Actualización del documento de consenso sobre etiología, diagnóstico y tratamiento de la otitis media aguda y sinusitis. *An Pediatr (Barc)* 2023;98(5):362-72. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.anpede.2023.03.006>.
8. Guía clínica de Otitis media aguda infantil. *Fisterra [Internet].* 2017. *Fisterra.com* [citado el 25 de junio de 2023]. Disponible en: <https://www.fisterra.com/fichas/interior.asp?idTipoFicha=1&urlseo=otitis-media-aguda-infantil>
9. Hellier WPL. Otitis media aguda. En *Otorrinolaringología pediátrica*,7,78-94;Madrid. Elsevier España, S.L.U. 2020 .
10. Michel G, Bordure P. Otitis crónica colestomatosa. *EMC-Otorrinolaringología.* 2020;49(4):1-10 [Artículo E – 20-095-A-20].
11. Billon-Galland L, Hermann R, Coudert A, Truy E. Otitis media crónica no colestomatosa: fisiopatología y formas clínicas. *EMC-Otorrinolaringología.* 2022;51(1):1-17[Artículo E – 20-095-A-10].

12. Brodsky J, Cusick B, Zhou G. Vestibular neuritis in children and adolescents: Clinical features and recovery. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2016;83:104-8. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2016.01.027>.
13. Wiener-Vacher S. Trastornos del equilibrio y vértigo en la infancia. *EMC – Otorrinolaringología.* 2017;46(1):1-11 [Artículo E – 20-210-B-10].
14. Goulioumis A, Angelopoulou M, Kourelis K. Vestibular neuronitis in a child with coronavirus disease 2019 infection and review of de literature. *J Laryngol Otol.* 2023;137:222-4. DOI: <https://doi.org/10.1017/S0022215122002420>.
15. Manrique Lipa RD, Soto Varela A, Santos Pérez S, Manrique Lipa RK, Lorenzo Lorenzo AI, Labella Caballero T. Alteraciones del equilibrio en pacientes menores de 16 años distribuidos por grupos de edad. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2008;59(9):455-62. DOI: [https://doi.org/10.1016/S0001-6519\(08\)75118-5](https://doi.org/10.1016/S0001-6519(08)75118-5).
16. Strupp M, Bisdorff A, Furman J, Hornigrook J, Jahn K, Maire R et al. Acute unilateral vestibulopathy/vestibular neuritis: Diagnostic criteria: Consensus document of the committee for the classification of vestibular disorders of the Bárány Society. *J Vestib Res.* 2022;32(5):389-406. DOI: <https://doi.org/10.3233/VES-220201>.
17. González-Sánchez M, Coscarón-Blanco E, Martín-Sánchez V, Yáñez-González R, Martín-Bailón M, Sánchez-Blanco C et al. Síntomas y signos de la hipofunción vestibular unilateral y bilateral. *Rev. ORL [Internet].* 2020 Mar [consultado 28 de mayo de 2023];11: 7-17. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S2444-79862020000100002&lng=es. Epub 04-Ene-2021. doi 14201/orl.21625.
18. Pellegrini S, Gonzalez Macchi ME, Sommerfleck PA, Bernáldez PC. Intratemporal complications from acute otitis media in children: 17 cases in two years. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2012;63(1): 21-5. doi :10.1016/j.otorri.2011.06.007.
19. Bois E, Teissier N. Otitis medias agudas. *EMC-Otorrinolaringología.* 2019;48(4):1-12 [Artículo E-20-085-A-10].
20. Maranhão AS, Godofredo VR, Penido N.d. e.O. Suppurative labyrinthitis associated with otitis media: 26 years' experience. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2016;82(1):82-7. doi: 10.1016/j.bjorl.2014.12.012.
21. Pérez-Piñero BA, Bluestone CD. Fístula perilinfática. En:Suárez-Nieto C, Gil-Carcedo García L, Marco-Algarra J, Medina JE, Ortega-Del Álamo P, Trinidad-Pinedo J editores. *Tratado de otorrinolaringología y cirugía de cabeza y cuello.* 2ª ed. Madrid: Editorial Médica Panamericana;2006.1581-90.
22. Reilly JS. Congenital perilymphatic fistula: a prospective study in infants and children. *Laryngoscope.* 1989;99:393-7. DOI: <https://doi.org/10.1288/00005537-198904000-00006>.
23. Morera C, Pérez H, Pérez N, Soto A. Clasificación de los vértigos periféricos. Documento de Consenso de la Comisión de Otoneurología de la Sociedad Española de Otorrinolaringología (2003-2006). *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2008;59(2):76-9. DOI: [https://doi.org/10.1016/S0001-6519\(08\)73266-7](https://doi.org/10.1016/S0001-6519(08)73266-7).
24. Sarna B, Abouzari M, Merna C, Jamshidi S, Saber T, Djalilian HR. Perilymphatic Fistula: A Review of Classification, Etiology, Diagnosis, and Treatment. *Front Neurol [Internet].* 2020 Sep [Consultado 27 Abr 2022];11:1046. Disponible en: <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fneur.2020.01046/full>. DOI: <https://doi.org/10.3389/fneur.2020.01046>.
25. Mena-Domínguez EA. Revisión sobre la prueba de hiperventilación y la de Valsalva. *Rev ORL.* 2017;9(2):133-7. DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.17385>.
26. Basura GJ, Adams ME, Monfared A, Schwartz SR, Antonelli PJ, Burkard R et al. Clinical Practice Guideline: Ménière's Disease. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2020;162(2_suppl):S1-S55. DOI: <https://doi.org/10.1177/0194599820909438>.
27. Aust G, Novotný M. Ménière's disease and various types of vertigo in children. *Int Tinnitus J.* 2005;11:66-8.
28. Hoskin JL. Ménière's disease: new guidelines, subtypes, imaging, and more. *Curr Opin Neurol.* 2022;35:90-7. DOI: <https://doi.org/10.1097/WCO.0000000000001021>.
29. Gedik-Soyuyuce O, Gence-Gumus Z, Ozdilek A, Ada M, Korkut N. Vestibular disorders in

- children: A retrospective analysis of vestibular function test findings. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2021;146:110751. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2021.110751>.
30. Lopez-Escamez JA, Carey J, Chung WH, Goebel JA, Magnusson M, Mandalà M et al. Diagnostic criteria for Ménière's disease. *J Vest Res.* 2015;1:1-7. DOI: <https://doi.org/10.3233/VES-150549>.
31. Wang C, Wu CH, Cheng PW, Young YH. Pediatric Ménière's disease. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2018;105:16-9. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2017.11.029>.
32. Martines F, Dispenza F, Montalbano C, Priola R, Torrente A, La Gumina R et al. Comparison of Electrocochleography and Video Head Impulse Test findings in Vestibular Migraine and Ménière Disease: A Preliminary Study. *J Int Adv Otol.* 2020;16(2):183-9. DOI: <https://doi.org/10.5152/iao.2020.8165>.
33. Hannigan IP, Welgampola MS, Watson SRD. Dissociation of caloric and head impulse tests: a marker of Ménière's disease. *J Neurol.* 2021;268(2):431-9. doi: 10.1007/s00415-019-09431-9.
34. Paškoniėnė A, Baltagalvienė R, Lengvenis G, Beleškienė V, Ivaška J, Markevičiūtė V et al. The Importance of the Temporal Bone 3T MR Imaging in the Diagnosis of Ménière's Disease. *Otol Neurotol.* 2020;41(2):235-41. DOI: <https://doi.org/10.1097/MAO.0000000000002471>.
35. Scarpa A, Ralli M, Cassandro C, Gioacchini FM, Greco A, Di Stadio A et al. Inner-ear disorders presenting with air-bone gaps: A review. *J Int Adv Otol.* 2020;16:111-6. DOI: <https://doi.org/10.5152/iao.2020.7764>.
36. Nevoux J, Barbara M, Dornhoffer J, Gibson W, Kitahara T, Darrouzet V. International consensus (ICON) on treatment of Ménière's disease. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2018;135(1S):S29-S32. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2017.12.006>.
37. Viola P, Marciánò G, Casarella A, Pisani D, Astorina A, Scarpa A et al. The Pharmacological Treatment of Pediatric Vertigo. *Children (Basel)* [internet].2022 [acceso 26 de abril de 2023];9: 584. DOI: <https://doi.org/10.3390/children9050584>.
38. Brandt T, Strupp M, Dieterich M. Vestibular paroxysmia: a treatable neurovascular cross-compression syndrome. *J Neurol.* 2016;263 Suppl 1:S90-6. DOI: <https://doi.org/10.1007/s00415-015-7973-3>.
39. Hüfner K, Barresi D, Glaser M, Linn J, Adrian C, Mansmann U et al. Vestibular paroxysmia: diagnostic features and medical treatment. *Neurology.* 2008;71(13):1006-14. DOI: <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000326594.91291.f8>.
40. Jannetta PJ. Neurovascular cross-compression in patients with hyperactive dysfunction symptoms of the eighth cranial nerve. *Surg Forum.*1975;26:467-9.
41. Lehnen N, Langhagen T, Heinen F, Huppert D, Brandt T, Jahn K. Vestibular paroxysmia in children: a treatable cause of short vertigo attacks. *Dev Med Child Neurol.* 2015;57(4):393-6. DOI: <https://doi.org/10.1111/dmcn.12563>.
42. van de Berg R, Widdershoven J, Bisdorff A, Evers S, Wiener-Vacher S, Cushing SL et al. Vestibular Migraine of Childhood and Recurrent Vertigo of Childhood: Diagnostic criteria Consensus document of the Committee for the Classification of Vestibular Disorders of the Bárány Society and the International Headache Society. *J Vestib Res.* 2021;31(1):1-9. DOI: <https://doi.org/10.3233/VES-200003>.
43. Strupp M, Lopez-Escamez JA, Kim JS, Straumann D, Jen JC, Carey J, et al. Vestibular paroxysmia: Diagnostic criteria. *J Vestib Res.* 2016;26(5-6):409-15. DOI: <https://doi.org/10.3233/VES-160589>.
44. Best C, Gawehn J, Kramer HH, Thomke F, Ibis T, Muller-Forell W et al. MRI and neurophysiology in vestibular paroxysmia: Contradiction and correlation. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 2013;84:1349-56. DOI: <https://doi.org/10.1136/jnnp-2013-305513>.
45. Strupp M, Elger C, Goldschagg N. Treatment of vestibular paroxysmia with lacosamide. *Neurol Clin Pract.* 2019;9(6):539-41. DOI: <https://doi.org/10.1212/CPJ.0000000000000610>.
46. Brandt T, Huppert T, Hüfner K, Zingler VC, Dieterich M, Strupp M. Long-term course and relapses of vestibular and balance disorders. *Restor Neurol Neurosci.* 2010;28(1):69-82. DOI: <https://doi.org/10.3233/RNN-2010-0504>.

47. Pérez-Vázquez P, Franco-Gutiérrez V, Soto-Varela A, Amor-Dorado JC, Martín-Sanz E, Oliva-Domínguez M et al. Practice Guidelines for the Diagnosis and Management of Benign Paroxysmal Positional Vertigo Otoneurology Committee of Spanish Otorhinolaryngology and Head and Neck Surgery Consensus Document. *Acta Otorrinolaringol Esp (Engl Ed)*. 2018;69:345-66. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.otorri.2017.05.001>.
48. Choi HG, Kim G, Kim BJ, Hong SK, Kim HJ, Lee HJ. How rare is benign paroxysmal positional vertigo in children? A review of 20 cases and their epidemiology. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2020 May;132:110008. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2020.110008>.
49. Brodsky JR, Lipson S, Wilber J, Zhou G. Benign Paroxysmal Positional Vertigo (BPPV) in Children and Adolescents: Clinical Features and Response to Therapy in 110 Pediatric Patients. *Otol Neurotol*. 2018;39(3):344-50. DOI: <https://doi.org/10.1097/MAO.0000000000001673>.
50. Wang A, Zhou G, Brodsky JR. Characteristics of Benign Paroxysmal Positional Vertigo in Young Children. *Laryngoscope*. 2023;133:694-9. DOI: <https://doi.org/10.1002/lary.30172>
51. Benito-Orejas JI, Poncela-Blanco M, Díez-González L, Álvarez-Otero R, Aguilera-Aguilera G, Intraprendente-Martini JF et al. Guía práctica del vértigo posicional paroxístico benigno. *Rev ORL*. 2017;8(3):157-96. DOI: <https://doi.org/10.14201/orl201783.15655>.
52. Galluzzi F, Garavello W. Benign Paroxysmal Positional Vertigo in Children: A Narrative Review. *J Int Adv Otol*. 2022;18(2):177-82. DOI: <https://doi.org/10.5152/iao.2022.20087>.
53. Yao Q, Song Q, Wang H, Shi H, Yu D. Benign paroxysmal positional vertigo in children. *Clin Otolaryngol*. 2019;44(1):21-5. DOI: <https://doi.org/10.1111/coa.13226>.
54. Strupp M, Kim JS, Murofushi T, Straumann D, Jen JC, Rosengren SM et al. Bilateral vestibulopathy: Diagnostic criteria Consensus document of the Classification Committee of the Bárány Society. *J Vestib Res*. 2017;27(4):177-89. doi: 10.3233/VES-170619. Erratum in: *J Vestib Res*. 2023;33(1):87. DOI: <https://doi.org/10.3233/VES-229002>.
55. Simon F, Peusner K, Lewis R, Beraneck M. Editorial: New Approaches to Investigate Congenital Vestibular Disorders. *Front Neurol*. 2022 May 30;13:921007. DOI: <https://doi.org/10.3389/fneur.2022.921007>.
56. Femia P, González del Pino B, Pérez-Fernández N. Exploración vestibular de niños con alteraciones del equilibrio (I): métodos de la exploración clínica e instrumental. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2011;62(4):311-7. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.otorri.2011.01.005>.
57. Wang A, Shearer AE, Zhou GW, Kenna M, Poe D, Licameli GR et al. Peripheral Vestibular Dysfunction Is a Common Occurrence in Children With Non-syndromic and Syndromic Genetic Hearing Loss. *Front Neurol [Internet]*2021[consultado 23 may 2023];12:714543. Disponible en <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fneur.2021.714543/full>. DOI: <https://doi.org/10.3389/fneur.2021.714543>.
58. Duarte DSB, Cabral AML, Britto DBLA. Vestibular assessment in children aged zero to twelve years: an integrative review. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2022;88 Suppl 3:S212-S224. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.bjorl.2022.09.006>.
59. Monin E, Bahim C, Baussand L, Cugnot JF, Ranieri M, Guinand N et al. Development of a new clinical tool to evaluate the balance abilities of children with bilateral vestibular loss: The Geneva Balance Test. *Front Neurol [Internet]*2023[consultado 4 julio 2023];7:14:1085926. Disponible en: <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fneur.2023.1085926/full>. DOI: <https://doi.org/10.3389/fneur.2023.1085926>.
60. Brotto D, Ariano M, Sozzi M, Cenedese R, Muraro E, Sorrentino F et al. Vestibular anomalies and dysfunctions in children with inner ear malformations: A narrative review. *Front Pediatr [Internet]*2023[consultado 4 julio 2023];Feb27;11:1027045. Disponible en: <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/10.3389/fped.2023.1027045/full>. DOI: <https://doi.org/10.3389/fped.2023.1027045>.

ANEXO 1

Tabla 1. Tabla de resultados.

Autor, año	Tipo de artículo	Resumen
Som, 2004.	Capítulo de libro.	Puede existir vestibulopatía sin hallazgos valorables radiológicos.
Frisenda, 2015.	Artículo original.	Debemos realizar una cuidadosa otoscopia y estudio audiológico y exploración otoneurológica, para optimizar las peticiones de estudios de imagen.
Dalaqua, 2021.	Artículo original.	Indicación de pruebas de imagen, como la resonancia magnética (RMN) y la tomografía computarizada (TAC).
Zayas, 2011.	Artículo original.	El pronóstico depende de la gravedad del traumatismo y del grado de daño causado al cerebro y al oído interno. Es importante hacer un diagnóstico temprano para minimizar complicaciones.
Cubero Santos, 2017.	Guía clínica.	Revisión narrativa, que incluye árbol de decisiones, sobre el manejo de la OMA infantil en Atención Primaria.
Krause, 2016.	Artículo de revisión	Revisión narrativa acerca de la epidemiología, fisiopatología, etiología, diagnóstico, evolución clínica y tratamiento de la OMA.
López Martín, 2023.	Artículo de revisión.	Actualización de los documentos de consenso tras introducir vacunas antineumocócicas en el calendario vacunal español.
Fisterra, 2017.	Guía clínica.	Manejo de OMA infantil.
Hellier, 2020.	Capítulo de libro.	Capítulo sobre otitis medias infantiles y sus complicaciones.
Michel, 2020.	Capítulo de libro.	Capítulo sobre colesteatoma y sus complicaciones
Billon-Galland, 2022.	Capítulo de libro.	Capítulo sobre formas crónicas de otitis. Descripción fisiopatológica, clínica y complicaciones.
Brodsky, 2016.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 11 casos desde 2012 a 2015. Cuadro clínico, hallazgos en pruebas complementarias y recuperación.
Wiener-Vacher, 2017.	Capítulo de libro.	Revisión sobre los trastornos del equilibrio de la infancia.
Goulioumi, 2019.	Artículo original.	Caso clínico y revisión narrativa sobre NV por virus SARS-COV2. Su gran neurotropismo justifica neuritis. Tratamiento similar a neuritis por otros virus.
Manrique Lipa, 2008.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 125 pacientes evaluando prevalencia y características clínicas de los subtipos de vértigo infantil. No es necesario pruebas de imagen salvo traumatismo, cefalea o síntomas neurológicos. Propone algoritmo de diagnóstico del vértigo infantil.
Strupp, 2022.	Documento de consenso.	Criterios diagnósticos de la NV /Vestibulopatía aguda unilateral de la Sociedad Bárány.
González-Sánchez, 2020.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa sobre la vestibulopatía unilateral y bilateral.
Pellegrini, 2011.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 17 casos entre 2008 y 2009 de complicaciones intratemporales de mastoiditis. El 41% presentaron laberintitis, el 17% complicación intracaneal. La gran mayoría requirieron asociar al tratamiento antibiótico iv, timpanocentesis (16/17). Cirugía 15%. Secuelas.
Bois, 2019.	Capítulo de libro.	Capítulo sobre las otitis medias y sus complicaciones.
Maranhão, 2020.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de experiencia de 26 años describiendo clínica, hallazgos en pruebas complementarias y secuelas. Muchas laberintitis asocian otras complicaciones. Papel de pruebas de imagen.
Pérez-Piñero, 2006.	Capítulo de libro.	Revisión de FP: definición, clasificación, clínica, diagnóstico y tratamiento de la FP.
Reilly, 1989.	Artículo original.	Estudio prospectivo descriptivo (1983-1986, 244 niños) en el que se recogen: Hallazgos radiológicos (TC) de FP. Hallazgos durante cirugía. Resultados audiométricos tras cirugía.

(continúa)

CAUSAS DE VÉRTIGO PERIFÉRICO EN LA INFANCIA
 COSCARÓN-BLANCO E, SANTOS-GORJÓN P, PÉREZ-LIEDO MC ET AL.

Tabla 1. Tabla de resultados. (continuación)

Autor, año	Tipo de artículo	Resumen
Morera, 2008.	Documento de consenso.	Documento de Consenso de la Comisión de Otoneurología de la Sociedad Española de Otorrinolaringología en el que se revisan los criterios diagnósticos de los distintos tipos de vértigos periféricos.
Sarna, 2022.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa en la que se incluye etiología, diagnóstico y tratamiento de la FP.
Mena- Domínguez, 2017.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa en la que se describe cómo realizar la maniobra de Valsalva en pacientes con sospecha de patología vestibular y su interpretación.
Basura, 2020.	Guía de práctica clínica.	Guía actualizada para el diagnóstico y tratamiento de la EM.
Aust, 2005.	Artículo original.	Revisión sobre el perfil clínico de la EM en niños.
Hoskin, 2022.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa de guías y perspectivas futuras.
Gedik-Soyuyuce, 2022	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 203 pacientes en 3 años. Prevalencia de cada subtipo de vértigo infantil y hallazgos típicos para diagnóstico diferencial.
Lopez-Escamez, 2015.	Documento de consenso.	Criterios diagnósticos de la EM.
Wang, 2018.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 374 pacientes pediátricos estudiados entre 2005 y 2016 por vértigo, de los que 24 sufrían EM. La mayoría tenía antecedentes familiares y un patrón de afectación del oído interno similar al adulto.
Martines F, 2020.	Artículo original.	Estudio prospectivo de cohortes comparando hallazgos VHIT y electrococleográficos en EM y Migraña vestibular. La probabilidad de hallazgos electrococleográficos anormales es mayor en EM sin encontrar diferencias en resultados VHIT.
Hannigan, 2021.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 644 pacientes con vértigo o clínica vestibular. Concordancia calórica-VHIT en CSH. Su disociación puede ser marcador de enfermedad de Ménière.
Paškonienė, 2020.	Artículo original.	Estudio observacional de 105 pacientes con EM probable o definida. Utilidad de la RMN en el diagnóstico.
Scarpa A, 2020.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa sobre las diferentes patologías del oído interno que pueden cursar con gap conductivo audiométrico y su diagnóstico diferencial.
Nevoux, 2017.	Documento de consenso.	Documento de consenso ICON sobre tratamiento de la EM.
Viola, 2022.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa .Recomendaciones de tratamiento farmacológico en vértigo infantil.
Brandt, 2016.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa por los autores que describieron la PV en 1994 actualizada.
Hüfner K, 2008.	Artículo original.	Estudio prospectivo de seguimiento de casos diagnosticados de PV durante un periodo aprox de 31 meses. Descripción de hallazgos más frecuentes y respuesta a tratamiento.
Jannetta PJ, 1975.	Artículo original.	Experiencia clínica del departamento de neurocirugía de la universidad de Pittsburgh en PV.

CAUSAS DE VÉRTIGO PERIFÉRICO EN LA INFANCIA
COSCARÓN-BLANCO E, SANTOS-GORJÓN P, PÉREZ-LIEDO MC ET AL.

Autor, año	Tipo de artículo	Resumen
Lehnen, 2015.	Artículo original.	Serie de casos pediátricos en un Centro especializado en Vértigo y trastornos del equilibrio. Clínica, diagnóstico y respuesta al tratamiento.
van de Berg, 2021.	Documento de consenso.	Criterios diagnósticos de la PV de la Sociedad Bárány y la Sociedad Internacional de Cefaleas.
Strupp, 2016.	Documento de consenso.	Documento de Consenso de la Sociedad Bárány: criterios diagnósticos, diagnósticos diferenciales, pruebas de imagen y estudios complementarios.
Best, 2013.	Artículo original.	Estudio prospectivo de cohortes. Solo la combinación de exámenes clínicos, pruebas neurofisiológicas e imagen RMN puede detectar el lado causante de un síndrome de compresión neural y diferenciar hiperexcitabilidad de déficit.
Strupp, 2019.	Artículo original.	Estudio prospectivo de serie de casos en adultos. Uso terapéutico de lacosamida en la paroxismia.
Pérez-Vázquez, 2018.	Guía de práctica clínica.	Documento de consenso para el diagnóstico y tratamiento del VPPB, elaborado por la Comisión de Otoneurología de la SEORL.
Choi, 2020.	Artículo original.	Revisión retrospectiva de 20 casos (2007-2011) cuyo objetivo es describir las características clínicas del VPPB pediátrico y estimar la frecuencia del mismo en la población general.
Brodsky, 2018.	Artículo original.	Estudio descriptivo retrospectivo (2012-2017, 120 pacientes de 5 a 19 años) en el que se recogen datos demográficos, comorbilidades, canal afecto, respuesta al tratamiento e incidencia de recurrencias.
Wang, 2023.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 34 casos Artículo original. (2012-2021) cuyo objetivo es determinar las características clínicas del VPPB en niños pequeños.
Benito-Orejas, 2017.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa y guía para el diagnóstico y tratamiento del VPPB auspiciada por la Sociedad Otorrinolaringológica de Castilla y León, Cantabria y La Rioja.
Galluzzi, 2022.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa cuyo objetivo es proporcionar la evidencia disponible sobre el VPPB en niños, haciendo hincapié en la concienciación y educación de los médicos que tratan niños para identificar esta patología.
Yao, 2019.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 6 casos (2014-2015) que concluye que el VPPB puede identificarse y tratarse en niños con la historia clínica y los test posicionales y tratarse aplicando las maniobras adecuadas.
Strupp M, 2017.	Documento de consenso.	Documento de consenso de la Sociedad Bárány en la que se establecen los criterios diagnósticos de la VPB.
Simon, 2022.	Editorial.	Artículo editorial que forma parte de un bloque de siete artículos sobre enfoques para investigar los trastornos congénitos vestibulares. Se incluyen cuatro artículos
Fermia, 2011.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa de los métodos de exploración vestibular oculomotora, postural y de habilidades motrices necesarias para el equilibrio
Wang, 2023.	Artículo original.	Estudio retrospectivo de 44 niños (2014- 2020) con hipoacusia de causa genética y sus respectivas pruebas vestibulares previas a implantación coclear.
Duarte, 2022.	Revisión sistemática.	Revisión sistemática (1969-2020): principales pruebas de evaluación vestibular en niños de 0 a 12 años y los motivos de derivación para dicha evaluación.
Monin, 2023.	Artículo original.	Estudio observacional prospectivo (37 niños) para valorar el Geneva Balance Test, herramienta que permite cuantificar la capacidad de equilibrio de los niños, detectar VPB y mejorar dicho equilibrio.
Brotto, 2023.	Artículo de revisión.	Revisión narrativa que resume la literatura disponible sobre anomalías y disfunción vestibular en niños con malformaciones del oído interno.

ANEXO 2

Tabla 2. Propuestas de tratamiento farmacológico.

	Familia	Dosis	Indicaciones	Comentarios
Dimenhidrato	Antihistamínicos (H1)	2-6 años: 12,5-25mg/8h v.o 6-11 años: 25-50mg /8h v.o >12 años: 50-100 mg /6 horas v.o	Neuritis vestibular Enfermedad de Ménière	Somnolencia Cefalea Boca seca Retención urinaria Gastrointestinal
Flunarizina	antiH1 y calcio antagonista	2,5-5 mg/día v.o	Enfermedad de Ménière	Sin información en <12 años Ganancia ponderal Mialgia Alteración sueño
Hidroclorotiazida	Inhibidor cotransportador Na-Cl túbulo distal	6,25 mg/24h v.o.	Enfermedad de Ménière	Sin datos en < 6 años
Espironolactona	Antagonista receptor mineralocorticoide	No establecida	Enfermedad de Ménière	No hay datos en <12 años.
Hidrocortisona	Antiinflamatorio. Reduce transcripción genética	0,5-0,75 mg/kg/24 h en ataque v.o o i.v Mantenimiento según peso 20-40 mg dosis total	Neuritis vestibular Enfermedad de Ménière	Dosis no establecidas
Metilprednisolona	Antiinflamatorio. Reduce transcripción genética	0,8-1,5 mg/día v.o o iv. Reducción Mantenimiento 2-8 mg/24 horas /día	Neuritis vestibular Enfermedad de Ménière Laberintitis Traumatismo	Dosis no establecidas
Ondansetrón	Antagonista 5HT3	0.1-0.15 mg /kg/4 h vo (máx 4-8 mg total) Peso <10kg: 2mg/12 h iv Peso >10 kg 4mg/12 h iv		Coadyuvante antiemético
Diazepam	Benzodiazepina	0,12-0,8 mg/kg/día en 2-3 tomas iv lento, vo, rectal máximo 5mg si <5 años.	Crisis de Ménière Neuritis Vestibular Laberintitis Traumatismos	
Carbamacepina	Antiepiléptico Estabilizador de membranas neurales hiperexcitadas	2-4mg/kg/día	Paroxismia vestibular	Sedante. Anticolinérgico, relajante Sin restricción por edad.
Oxcarbacepina	Antiepiléptico Estabilizador de membranas neurales hiperexcitadas	8-10 mg/kg/día	Paroxismia vestibular	Seguridad no establecida en <6 años. Posible neurotoxicidad Menos interacciones que carbamacepina
Dexametasona	Antiinflamatorio. Reduce transcripción genética	No establecida (4-8 mg/12-24 horas)	Neuritis, laberintitis, traumatismo, Crisis de Ménière	No recomendada en < 12 años Antiemético

Nota: Los autores de la presente tabla han puesto especial cuidado en que las indicaciones, pautas, dosis y comentarios se ajusten a la praxis, indicaciones, protocolos, guías y recomendaciones actuales. Cualquier fármaco mencionado en esta tabla debe ser utilizado de acuerdo a las fichas técnicas de los mismos y bajo el propio criterio y responsabilidad del prescriptor, no siendo los autores responsables de un uso incorrecto o indebido de los mismos.

CAUSAS CENTRALES ESTRUCTURALES DE VÉRTIGO EN LA INFANCIA

Structural central causes of vertigo in childhood

Cristina CORDERO-CIVANTOS ; Laura ÁLVAREZ-GÓMEZ ; Irene GÓMEZ-GREGORIS ;
Cristina MARTÍNEZ-AUSIN ; Jorge BEDIA-GARCÍA ; María Isabel CALLE-CABANILLAS ;
Judith PÉREZ-SÁEZ ; Arturo RIVAS-SALAS ; Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA 

Hospital Universitario de Burgos. Servicio de Otorrinolaringología. Burgos. España.

Correspondencia: cris.corciv@gmail.com

Fecha de recepción: 1 de agosto de 2023

Fecha de aceptación: 14 de octubre de 2023

Fecha de publicación: 16 de octubre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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 principales causas del vértigo en la infancia son benignas y tienen un pronóstico favorable, siendo las más prevalentes el vértigo paroxístico de la infancia y la migraña vestibular. Menos frecuentes son las causas centrales de vértigo, pero la mayoría de ellas se asocian a trastornos graves y potencialmente mortales, de ahí la importancia de realizar un diagnóstico temprano y así poder iniciar un tratamiento específico para cada patología. El objetivo de este artículo es realizar una revisión de la bibliografía sobre aquellas causas estructurales más frecuentes de vértigo central, y así poder identificarlas con mayor sencillez y rapidez en la práctica clínica diaria. Método: Se ha realizado una revisión narrativa de la literatura en las bases de datos de Pubmed, Dialnet y SciELO de artículos publicados sobre causas de vértigo central en la infancia, en los últimos 15 años. Conclusiones: Las causas centrales estructurales de vértigo en la infancia son variadas y poco frecuentes. Se caracterizan por asociar a la clínica vestibular otros síntomas neurológicos centrales y cefalea. Y dada la gravedad de alguna de ellas, es preciso realizar un diagnóstico mediante pruebas de imagen, principalmente la RMN, e iniciar un tratamiento específico lo antes posible.

PALABRAS CLAVE: vértigo central; epilepsia; fosa posterior; cerebelitis; cefalea; ataxia; niño.

SUMMARY: Introduction and objective: The main causes of vertigo in childhood are benign and have a favorable prognosis, the most prevalent being recurrent vertigo of childhood and vestibular migraine [1]. Less frequent are the central causes of vertigo, but most of them are associated with serious and life-threatening disorders, hence the importance of making an early diagnosis and thus being able to start a specific treatment for each pathology. Method: A narrative review of the literature in the Pubmed, Dialnet and SciELO databases of articles published on causes of central vertigo in childhood in the last 15 years has been carried out. Conclusions: The structural core causes of vertigo in childhood are varied and rare. They are characterized by associating the vestibular clinic with other central neurological symptoms and headache. the seriousness of some of them, it is necessary to make an early diagnosis through imaging tests, mainly MRI, and start a specific treatment as soon as possible.

KEYWORDS: central vertigo; epilepsy; posterior fossa; cerebelitis; headache; ataxia; children.

INTRODUCCIÓN

El vértigo y el mareo en la infancia, son más frecuentes de lo esperable en las urgencias hospitalarias o en las consultas de pediatría y otorrinolaringología [1]. Supone un reto diagnóstico para el pediatra y otorrinolaringólogo; por la dificultad en la anamnesis ya que a menudo, los niños no son capaces de describir o diferenciar los síntomas vestibulares; y también por la dificultad de la exploración otoneurológica y realización de pruebas vestibulares a edades muy tempranas [2].

Las principales causas del vértigo en la infancia son benignas y tienen un pronóstico favorable, siendo las más prevalentes; el vértigo paroxístico de la infancia y la migraña vestibular [1]. Menos frecuentes son las causas centrales de vértigo, pero la mayoría de ellas se asocian a trastornos graves y potencialmente mortales. De ahí la importancia de realizar un diagnóstico temprano y así poder iniciar un tratamiento específico para cada patología.

El objetivo de este artículo, es realizar una revisión de la literatura sobre aquellas causas estructurales más frecuentes de vértigo central, y así poder identificarlas con mayor sencillez y rapidez en la práctica clínica diaria.

MATERIAL Y MÉTODO

Revisión narrativa sobre las causas estructurales de vértigo central; para ello, se ha hecho una

búsqueda en las bases de datos PubMed, SciELO y Dialnet de los artículos y capítulos de libros publicados en los últimos quince años sobre prevalencia y diagnóstico de vértigo en la infancia. En la revisión no se han encontrado artículos centrados en vértigo de origen central en la infancia, por lo que se han buscado publicaciones específicas sobre las diferentes causas.

RESULTADOS

En la Tabla 1 se recogen los artículos revisados y en qué se centran cada uno de ellos.

DISCUSIÓN

Las causas vestibulares centrales, en la infancia son de etiología y manifestaciones variadas, con tratamientos muy específicos y por tanto, van a precisar un abordaje multidisciplinar.

Las causas centrales estructurales hay que sospecharlas en pacientes con mareo, inestabilidad y cefalea persistente, y con exploración y pruebas otoneurológicas (audiometría, VNG, v-HIT) dentro de la normalidad; y que además presentan una evolución tórpida con signos de alarma como: focalidad neurológica (ataxia, dismetría), nistagmo de características centrales, caídas y convulsiones. La gravedad de algunas de ellas, hacen preciso que para su diagnóstico, haya que solicitar pruebas de

Tabla 1. Principales artículos revisados.

Primer autor	Año	Periodo de estudio	Tema principal de estudio en el artículo
Gioacchini [1]	2014	1990-2013	Prevalencia y diagnóstico vértigo en la infancia
Jahn [2]	2011		Diagnóstico vértigo en la infancia
Batu [3]	2014	1996-2012	Diagnóstico vértigo en la infancia
Raucci [18]	2015	2009-2013	Prevalencia y diagnóstico vértigo en la infancia
García-Iñiguez [17]	2017	2007-2016	Cerebelitis aguda
Yildirim [6]	2020	2011-2019	Cerebelitis aguda
Brandao [5]	2017		Tumores de fosa posterior
Russell [10]	2013		Epilepsia vestibular
Marsden [13]	2018		Capítulo de libro. Ataxia cerebelosa
Freundlich [15]	2012		Accidentes cerebrovasculares

neuroimagen, como el TAC y la RMN, o un ECG lo antes posible [2, 3].

TUMORES DE LA FOSA POSTERIOR

Los tumores cerebrales son el tumor sólido más frecuente en la edad pediátrica, ya que son los segundos en frecuencia tras el grupo formado por linfomas y leucemias. Dentro de estas neoplasias, los tumores de fosa posterior son los de mayor prevalencia, siendo los más frecuentes el meduloblastoma, el astrocitoma pilocítico y el glioma del tronco cerebral [4, 5].

La mayoría de los pacientes con tumores de la fosa posterior, van a presentar clínica de hipertensión intracraneal con episodios de cefalea recurrente, náuseas y vómitos matutinos; y ataxia progresiva. En pacientes con tumores benignos como el astrocitoma pilocítico, el síntoma principal va a ser una ataxia de años de evolución. Sin embargo, en tumores malignos como el glioma de tronco cerebral, la clínica va a ser de evolución

más rápida con una ataxia rápidamente progresiva asociada a neuropatía de pares craneales e hipertensión intracraneal [5].

Ante la sospecha de neoformación de la fosa posterior, hay que solicitar una RMN para establecer el diagnóstico. Para el diagnóstico histológico se realizan biopsias mediante craneotomía posterior o biopsia estereotáctica.

El tratamiento indicado en los tumores va a ser, principalmente, la neurocirugía, tanto para reducción como para la exéresis tumoral. Dependiendo de la estirpe tumoral, se asociará a tratamiento con radioterapia o quimioterapia. El pronóstico es muy variable y dependerá del tamaño y tipo de tumor.

CEREBELITIS AGUDA

La cerebelitis aguda, es una disfunción cerebelosa transitoria, que se suele presentar más frecuentemente en niños entre los 2 y los 5 años [6]. Suele estar causado por infecciones virales o bacterianas, aunque hay casos descritos tras vacunación y tras la administración de algunos fármacos (opiáceos, antidepresivos tricíclicos) [7, 8]. La causa más frecuente conocida es, tras infección por virus varicela zoster. [7, 9]

Las manifestaciones clínicas iniciales son variables; pudiendo aparecer dolor de cabeza, vómitos, y somnolencia o alteración del nivel de consciencia; casi siempre, acompañados de síntomas cerebelosos como la ataxia, nistagmo de características centrales, la disartria y la dismetría [7, 8, 9]. Los síntomas suelen durar, desde un par de semanas hasta 3 meses.

Suele tratarse de un cuadro autolimitado, pero no por ello está exento de riesgos y complicaciones, como la hidrocefalia aguda y la hipertensión intracraneal que suponen un riesgo vital para el paciente.

El diagnóstico se basa en la sospecha clínica y las pruebas de imagen. La técnica gold standard en el diagnóstico es la RMN, en la que se pueden observar lesiones de aspecto inflamatorio a nivel

del cerebelo, aunque en un 5% de los casos es normal [9].

En secuencias T2 y FLAIR se puede apreciar aumento de señal en el córtex cerebeloso de manera uni o bilateral.

No existe un consenso claro en cuanto al tratamiento. Los casos más leves, generalmente no requiere tratamiento específico. En presencia de datos de hipertensión intracraneal e inflamación, los corticoesteroides a dosis altas pueden mejorar los síntomas.

En las cerebelitis de curso fulminante con hidrocefalia aguda y datos de compresión de tronco del encéfalo, sería necesaria una intervención quirúrgica urgente por parte de neurocirugía [6, 7, 8]

EPILEPSIA VESTIBULAR

El vértigo y los síntomas vestibulares han estado siempre ligados a las crisis epilépticas como uno más de sus síntomas. Pero en la segunda mitad del siglo XX y el siglo XXI con los avances en los ECG y estimulación de la corteza cerebral, se habla de epilepsia vestibular secundaria, una actividad irritativa epiléptica en el lóbulo temporal [10]. La incidencia de la epilepsia es de 0,6% en la población [11], siendo todavía menos prevalente la epilepsia vestibular.

La epilepsia vestibular, se caracteriza por crisis focales con síntomas vestibulares como manifestación principal. Los síntomas vestibulares pueden variar desde un leve desequilibrio hasta un vértigo franco en cualquier plano de acción, sin embargo, es raro tener síntomas puramente vestibulares aislados. Los síntomas acompañantes más comunes son; náuseas o vómitos y tinnitus. Pero también se han documentado otros síntomas como parestesias ipsilaterales y contralaterales, alucinaciones olfativas y gustativas, despersonalización, malestar epigástrico, ansiedad y *déjà-vu* que casi con seguridad reflejan la propagación local de la crisis [10]. Estas crisis son de corta duración (de segundos a minutos), agudas y de recuperación completa rápida.

El diagnóstico se va a realizar por la sospecha clínica y va a estar respaldado por hallazgos positivos en el ECG, siendo los focos temporales laterales frecuentes. El diagnóstico diferencial se debe realizar principalmente con la migraña basilar y la ataxia episódica tipo II. El tratamiento va a ser con antiepilépticos.

ATAXIA EPISÓDICA TIPO II

La Ataxia episódica tipo II, es una enfermedad con herencia autosómica dominante. Esta causada por mutaciones en el gen CACNA1A, que codifica la subunidad $\alpha 1$ del canal de Ca^{2+} , activado por voltaje, de tipo P/Q que es abundante en todo el sistema nervioso central y periférico. La clínica que presentan los pacientes, se caracteriza por ataques paroxísticos de ataxia, vértigo y náuseas, que duran desde minutos hasta días. Estos ataques pueden ser inducidos por estrés psicológico, sobresalto o esfuerzo. Entre los episodios, los pacientes son asintomáticos, pero pueden desarrollar signos interictales como; nistagmo y ataxia. El tratamiento con acetazolamida o 4-aminopiridina puede reducir la frecuencia y la severidad de los ataques en la mayoría de los casos [12-14]. El diagnóstico diferencial se debe realizar con epilepsia y con ataxia espinocerebelosa tipo 6 que también asocian mutaciones en este gen.

OTRAS CAUSAS

Otras ataxias cerebelosas; como algunos tipos de ataxia espinocerebelosa o la Ataxia de Friedreich, cursan con ataxia progresiva asociada a otros síntomas cerebelosos y síntomas neurológicos centrales y periféricos [13].

Accidentes cerebrovasculares; los cuales son muy poco frecuentes en la infancia, siendo menos prevalentes los que afectan a la fosa posterior. En muchas ocasiones se asocian a malformaciones arteriovenosas, patología cardiaca y tumores cerebrales. Dada la importancia y gravedad de esta entidad, es preciso un diagnóstico rápido, y por tanto solicitar una prueba de neuroimagen, TAC

o RMN, ante la más mínima sospecha clínica, y así poder iniciar precozmente el tratamiento más adecuado [15].

Malformaciones de la fosa posterior como malformaciones arteriovenosas, Arnold-Chiari, quistes cerebelosos o cisterna magna dilatada [16].

CONCLUSIONES

Las causas centrales estructurales de vértigo en la infancia son variadas y poco frecuentes. Se caracterizan por asociar a la clínica vestibular otros síntomas neurológicos centrales y cefalea.

Dada la importancia y gravedad de algunas de estas entidades, es preciso realizar un diagnóstico temprano y así poder instaurar un tratamiento específico de forma precoz.

Otra de las conclusiones extraídas de esta revisión bibliográfica es, que es conveniente solicitar pruebas de neuroimagen, principalmente una RMN, cuando a la clínica vestibular se asocian signos de alarma, como nistagmo de características centrales, cefalea persistente y ataxia progresiva.

BIBLIOGRAFÍA

1. Gioacchini FM, Alicandri-Ciufelli M, Kaleci S, Magliulo G, Re M. Prevalence and diagnosis of vestibular disorders in children: a review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2014 May;78(5):718-24. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2014.02.009>. Epub 2014 Feb 15. PMID: 24612555.
2. Jahn K, Langhagen T, Schroeder AS, Heinen F. Vertigo and dizziness in childhood - update on diagnosis and treatment. *Neuropediatrics*. 2011 Aug;42(4):129-34. <https://doi.org/10.1055/s-0031-1283158>. Epub 2011 Jul 15. PMID: 21766267.
3. Batu ED, Anlar B, Topçu M, Turanlı G, Aysun S. Vertigo in childhood: a retrospective series of 100 children. *Eur J Paediatr Neurol*. 2015 Mar;19(2):226-32. <https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2014.12.009>. Epub 2014 Dec 18. PMID: 25548116.
4. Kerleroux B, Cottier JP, Janot K, Listrat A, Sirinelli D, Morel B. Posterior fossa tumors in children: Radiological tips & tricks in the age of genomic tumor classification and advance MR technology. *J Neuroradiol*. 2020 Feb;47(1):46-53. <https://doi.org/10.1016/j.neurad.2019.08.002>. Epub 2019 Sep 18. PMID: 31541639.
5. Brandão LA, Young Poussaint T. Posterior Fossa Tumors. *Neuroimaging Clin N Am*. 2017 Feb;27(1):1-37. <https://doi.org/10.1016/j.nic.2016.08.001>. PMID: 27889018.
6. Yildirim M, Gocmen R, Konuskan B, Parlak S, Yalnizoglu D, Anlar B. Acute cerebellitis or postinfectious cerebellar ataxia? Clinical and imaging features in acute cerebellitis. *J Child Neurol*. 2020;35(6):380-8.
7. Espinosa-Sánchez JM, Benito-Orejas JI, Ferreira Cendón S, Castro Jiménez J. Vértigo pediátrico. Actualización en Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello [Internet]. Seorl.net.
8. Gökçe Ş, Kurugol Z, Aslan A. A rare cause of childhood cerebellitis-influenza infection: A case report and systematic review of literature. *Case Rep Pediatr*. 2017;2017:1-5.
9. Villar MM, González-Toro MC, serna-Berna JV, Jadraque-rodriguez R, Martínez-pastor P, Gómez-Gosálvez F. Cerebelitis aguda fulminante: caso excepcional y de evolución fatal [Internet]. *Serviciopediatria.com*. [citado el 17 de julio de 2023].
10. Hewett R, Bartolomei F. Epilepsy and the cortical vestibular system: tales of dizziness and recent concepts. *Front Integr Neurosci*. 2013 Nov 11;7:73. <https://doi.org/10.3389/fnint.2013.00073>. PMID: 24273498; PMCID: PMC3822407.
11. Fiest KM, Sauro KM, Wiebe S, Patten SB, Kwon CS, Dykeman J, Pringsheim T, Lorenzetti DL, Jetté N. Prevalence and incidence of epilepsy: A systematic review and meta-analysis of international studies. *Neurology*. 2017 Jan 17;88(3):296-303. <https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000003509>. Epub 2016 Dec 16. Erratum in: *Neurology*. 2017 Aug 8;89(6):642. PMID: 27986877; PMCID: PMC5272794.
12. Verriello L, Pauletto G, Nilo A, Lonigro I, Betto E, Valente M, Curcio F, Gigli GL. Epilepsy and episodic ataxia type 2: family study and review of the literature. *J Neurol*. 2021 Nov;268(11):4296-

4302. <https://doi.org/10.1007/s00415-021-10555-0>. Epub 2021 May 13. PMID: 33983550.
13. Marsden JF. Cerebellar ataxia. *Handb Clin Neurol*. 2018;159:261-281. <https://doi.org/10.1016/B978-0-444-63916-5.00017-3>. PMID: 30482319.
14. Betancourt Fursow Y, Jiménez León JC, Jiménez Betancourt CS. Ataxias agudas en la infancia [Acute cerebellar ataxia in childhood]. *Medicina (B Aires)*. 2013;73 Suppl 1:30-7. Spanish. PMID: 24072049.
15. Freundlich CL, Cervantes-Arslanian AM, Dorfman DH. Pediatric stroke. *Emerg Med Clin North Am*. 2012 Aug;30(3):805-28. <https://doi.org/10.1016/j.emc.2012.05.005>. PMID: 22974650.
16. Severino M, Huisman TAGM. Posterior Fossa Malformations. *Neuroimaging Clin N Am*. 2019 Aug;29(3):367-383. <https://doi.org/10.1016/j.nic.2019.03.008>. Epub 2019 May 2. PMID: 31256860.
17. García-Iñiguez JP, López-Pisón FJ, Madurga Revilla P, Montejo Gañán I, Domínguez Cajal M, Monge Galindo L, et al. Acute cerebellitis in paediatric patients: Our experience. *Neurol (Engl Ed)*. 2019 [citado el 14 de julio de 2023];34(5):291-9.
18. Raucci U, Vanacore N, Paolino MC, Silenzi R, Mariani R, Urbano A, Reale A, Villa MP, Parisi P. Vertigo/dizziness in pediatric emergency department: Five years' experience. *Cephalalgia*. 2016 May;36(6):593-8. <https://doi.org/10.1177/0333102415606078>. Epub 2015 Sep 16. PMID: 26378081.

DOS TIPOS DE NEOFORMACIONES DEL ESPACIO PARAFARÍNGEO, DOS EJEMPLOS DE ABORDAJES (EXTERNO Y ENDOSCÓPICO)

Two types of parapharyngeal neoformations, two examples of approaches (external and endoscopic)

Juan LOSADA-CAMPA ¹; Luis Miguel TORRES-MORIENTES ¹; Juan Francisco PASTOR-VÁZQUEZ ²;
Eduardo TAMAYO-GÓMEZ ³; Marta ALONSO-MESONERO ¹; Jaime SANTOS-PÉREZ ¹

¹Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Valladolid, España.

²Departamento de Anatomía y Radiología. Facultad de Medicina de la Universidad de Valladolid. España.

³Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Servicio de Anestesiología y Reanimación. Valladolid. España.

Correspondencia: jlosadacampa@gmail.com

Fecha de recepción: 22 de diciembre de 2023

Fecha de aceptación: 27 de febrero de 2024

Fecha de publicación: 22 de marzo 2024

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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 espacio parafaríngeo es un espacio profundo de la cabeza y el cuello de importante dificultad anatómica. Aunque es una región donde se localizan únicamente un 0.5% de los tumores craneocervicales y la mayoría de estos son benignos, presenta gran cantidad de estructuras neurovasculares fundamentales para la vida del paciente, y dado que el tratamiento óptimo de estas neoformaciones es el quirúrgico, es fundamental el estudio y conocimiento de esta área para una correcta atención del paciente. Método: Presentamos dos casos de pacientes intervenidos de grandes tumores del espacio parafaríngeo en el servicio de Otorrinolaringología del Hospital Clínico Universitario de Valladolid (HCUV) en los últimos 3 años mediante dos abordajes distintos (abordaje externo y abordaje endoscópico endonasal). Resultados: El primer paciente es un varón de 79 años intervenido de una cervicotomía derecha,

DOS TIPOS DE NEOFORMACIONES DEL ESPACIO PARAFARÍNGEO, DOS EJEMPLOS DE ABORDAJES
(EXTERNO Y ENDOSCÓPICO)

LOSADA-CAMPA J, TORRES-MORIENTES LM, PASTOR-VÁZQUEZ JF ET AL.

exéresis de tumoración parafaríngea-cervical y exéresis transoral (TOUSS) de tumor de base de lengua por un carcinoma de células acinares localizado en el espacio parafaríngeo preestíleo derecho. La segunda paciente es una paciente de 42 años intervenida mediante cirugía endoscópica nasosinusal (abordaje transpterygoideo de la fosa infratemporal) por una tumoración que ocupaba las fosas pterigopalatina e infratemporal izquierdas con diagnóstico de schwannoma. Discusión: Los abordajes externos han sido clásicamente el tipo de abordaje quirúrgico más utilizado, principalmente por su óptima exposición completa el campo quirúrgico. Sus principales inconvenientes son la gran repercusión sobre la funcionalidad de los tejidos, complicaciones postoperatorias, tiempo quirúrgico y tiempo de ingreso hospitalario como en el caso del primer paciente, que requirió un ingreso de 10 días, dos días de intubación orotraqueal postquirúrgica, rehabilitación y tratamiento complementario postquirúrgico con radioterapia. Los abordajes endoscópicos evitan las cicatrices faciales y tienen postoperatorios más cómodos y menos dolorosos para los pacientes como en el caso de la segunda paciente, con un ingreso de duración de 3 días. Su limitada visibilidad, un menor control de la arteria carótida interna (ACI) en caso de lesión, y la posibilidad de derrame tumoral (adenoma pleomorfo) hacen que los abordajes endoscópicos tengan una aplicación limitada en la actualidad. Conclusiones: Las tumoraciones del espacio parafaríngeo son una patología compleja y de difícil tratamiento. Actualmente, la exéresis quirúrgica completa sigue siendo el tratamiento de elección. Debido a que esta zona anatómica es de especial complejidad y presenta una amplia variedad de estructuras neurovasculares relevantes, es fundamental un estudio prequirúrgico arduo de las mismas para evitar complicaciones.

PALABRAS CLAVE: Abordajes; espacio; parafaríngeo; casos; externo; endoscópico.

SUMMARY: Introduction and objective: The parapharyngeal space is a deep space of the head and neck of important anatomical difficulty. Although it is a region where only 0.5% of craniocervical tumors are located and most of these are benign, it presents a large number of neurovascular structures essential for the patient's life, and since the optimal treatment of these neoformations is surgical, the study and knowledge of this area is essential for proper patient care. Methods: We present two cases of patients operated on for large tumors of the parapharyngeal space in the Otorhinolaryngology Department of the Hospital Clínico Universitario de Valladolid (HCUV) in the last 3 years using two different approaches (external approach and endoscopic endonasal approach). Results: The first patient is a 79-year-old man who underwent a right cervicotomy, excision of a parapharyngeal-cervical tumor and transoral excision (TOUSS) of a base of tongue tumor due to an acinar cell carcinoma located in the right parapharyngeal pre-stylar space. The second patient is a 42-year-old female patient operated by endoscopic nasosinusal surgery (transpterygoid approach of the infratemporal fossa) for a tumor occupying the left pterygopalatine and infratemporal fossae with a diagnosis of schwannoma. Discussion: External approaches have classically been the most widely used surgical approach, mainly because of their optimal exposure of the entire surgical field. Its main disadvantages are the great impact on tissue functionality, postoperative complications, surgical time and hospitalization time as in the case of the first patient, who required a 10-day hospitalization, two days of post-surgical orotracheal intubation, rehabilitation and complementary post-surgical treatment with radiotherapy. Endoscopic approaches avoid facial scarring and have more comfortable and less painful postoperative periods for patients, as in the case of the second patient, with a 3-day hospital stay. Their limited visibility, less control of the internal carotid artery (ICA) in case of injury, and the possibility of tumor spillage (pleomorphic adenoma) make endoscopic approaches of limited application at present. Conclusions: Tumors of the parapharyngeal space are a complex pathology and difficult to treat. Currently, complete surgical excision remains the treatment of choice. Because this anatomical area is particularly complex and presents a wide variety of relevant neurovascular structures, a thorough pre-surgical study of these structures is essential to avoid complications.

KEYWORDS: Approach; space; parapharyngeal; cases; external; endoscopic.

INTRODUCCIÓN

El espacio parafaríngeo es un espacio profundo de la cabeza y el cuello, subdividido en dos regiones (el espacio preestíleo y retroestíleo) de importante dificultad anatómica.

El compartimento preestíleo contiene principalmente músculos, estructuras vasculonerviosas y parte del lóbulo profundo de la glándula parótida, por lo que en este compartimento la mayoría de las neoformaciones son neoplasias con origen en las glándulas salivales (40-50%) [1].

El compartimento retroestíleo contiene fundamentalmente estructuras vasculonerviosas, de espacial relevancia quirúrgica, (la vena yugular interna, los nervios craneales inferiores IX, X, XI y XII, la cadena simpática cervical y la arteria carótida interna). En esta zona las neoformaciones más frecuentes son las neurogénicas (20%) [1].

El espacio parafaríngeo es una región donde se localizan únicamente un 0.5% de los tumores craneocervicales, siendo la mayor parte de ellos tumores de glándulas salivales benignos. La clínica de estos tumores es variada y suele darse únicamente en los tumores mayores a 2.5-3cm. Puede incluir masas cervicales, medialización de la pared lateral de la orofaringe, sensación de cuerpo extraño faríngeo, disfagia o disfonía [2].

Las pruebas de imagen siguen siendo el método diagnóstico fundamental, especialmente la resonancia magnética (RM), que aporta información sobre la localización, la extensión y el tipo de tumor, aunque la tomografía computarizada (TC) con contraste también puede ser una herramienta útil. El diagnóstico definitivo se realiza mediante citología por aspiración con aguja fina (PAAF) [3].

El tratamiento de estos tumores parafaríngeos es en la actualidad la exéresis quirúrgica [1-12].

El objetivo de este artículo es presentar dos casos de tumores del espacio parafaríngeo y describir dos tipos de abordaje de este mismo espacio, analizando las beneficios y desventajas que ofrecen cada una de ellas.

MATERIAL Y MÉTODO

Presentamos dos casos de pacientes intervenidos de grandes tumores del espacio parafaríngeo en el servicio de Otorrinolaringología del Hospital Clínico Universitario de Valladolid (HCUV) en los últimos 3 años. Se realizaron diferentes tipos de abordajes del espacio parafaríngeo (siendo en el primer caso un abordaje externo y en el segundo caso un abordaje endoscópico endonasal) en pacientes con sintomatología variada tras realización de amplios estudios de imagen y anatomo-patológicos.

DESCRIPCIÓN DEL CASO

CASO 1 – ABORDAJE EXTERNO Y EXÉRESIS TRANSORAL (TOUSS) (FIGURAS 1 A 3)

El primer paciente fue un varón de 79 años, conocido diabético e hipertenso, que acudió a urgencias por presentar una masa cervical derecha no dolorosa de crecimiento progresivo de un mes de evolución. No refería disnea, pero sí disfagia sobre todo a alimentos líquidos.

En la exploración en urgencias se objetivó a la palpación cervical una tumoración pétreo adherida al ángulo mandibular derecho (región II/V derecha), de unos 5-7x4 cm, no dolorosa a la palpación. Se identificó también una lesión vegetante en la base de la lengua. El resto de la exploración fue normal.

Se solicitó una RM donde se describía una lesión que desde el extremo derecho de la base de la lengua se extendía hacia la pared posterolateral de la orofaringe, en íntima relación con el polo anteroinferior de la amígdala palatina derecha, sin sobrepasar la línea media. Presentaba unos diámetros máximos aproximados de 20 mm en sus tres ejes. Mostraba restricción a la difusión y aumento de la perfusión. Se asociaba a una adenopatía en localización yugulo-carotídea alta y media de unos 6x5x3 cm.

DOS TIPOS DE NEOFORMACIONES DEL ESPACIO PARAFARÍNGEO, DOS EJEMPLOS DE ABORDAJES
(EXTERNO Y ENDOSCÓPICO)

LOSADA-CAMPA J, TORRES-MORIENTES LM, PASTOR-VÁZQUEZ JF ET AL.

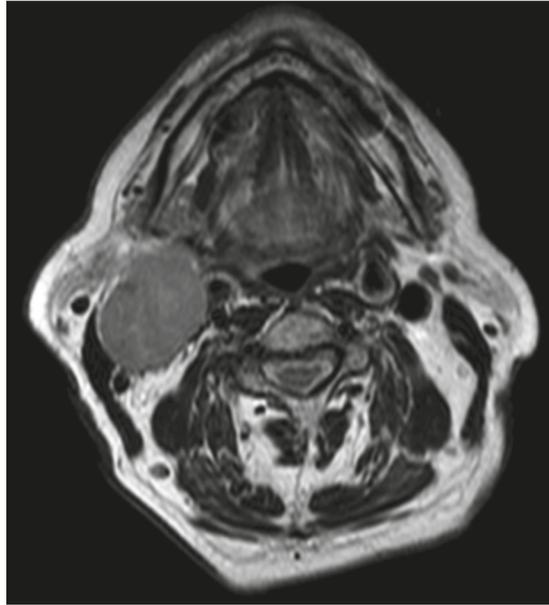


Figura 1. Imágenes prequirúrgicas (TC) del caso 1.

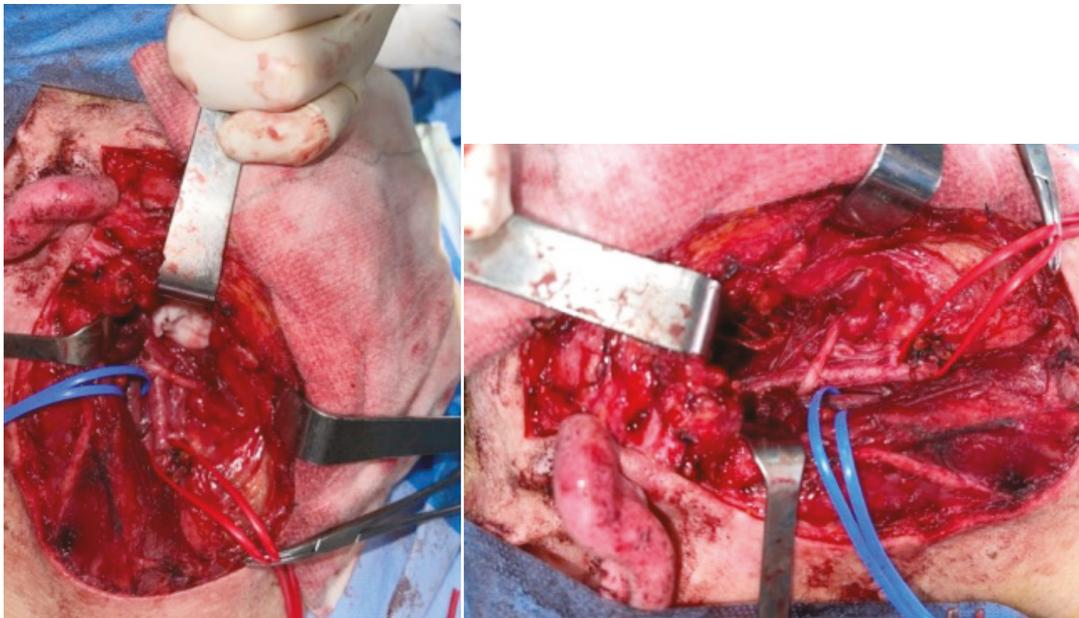


Figura 2. Espacio parafaríngeo, pre y retroestileo, tras exéresis tumoral. Identificación de estructuras vasculonerviosas (carótida externa, hipogloso, glosfaríngeo y ramillete de Riolano).

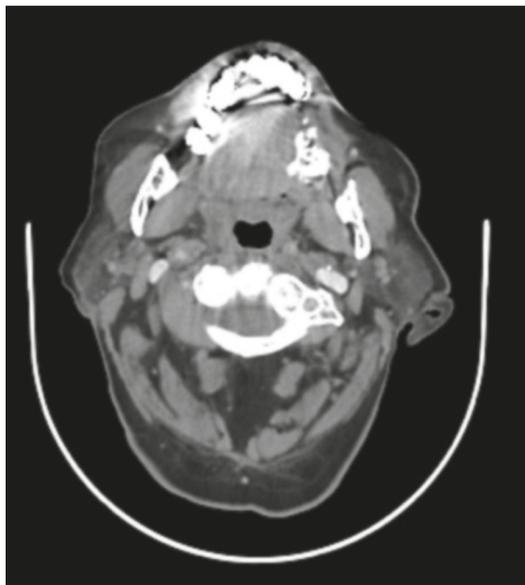


Figura 3. Imagen posquirúrgica (TC) 1 año tras la cirugía del caso 1.

Se realizó también una TC de tórax, donde se describían, en los cortes más superiores del estudio, el borde inferior del conglomerado adenopático latero-cervical derecho referido en RM, que condicionaba colapso de arteria carótida común derecha. No se observaban neoformaciones a otro nivel.

Se realizó punción con aguja fina (PAAF) de la tumoración latero-cervical derecha de 5-6 cm (pétrea) donde se aislaron células escamosas sin otra celularidad representada. Concluyeron haber citología insuficiente para correcto un diagnóstico citológico.

Tras obtener los resultados de todos estos estudios solicitados el paciente fue intervenido quirúrgicamente con importante prioridad. Se realizó una cervicotomía derecha, exéresis de tumoración parafaríngea-cervical y exéresis transoral (TOUSS) del tumor de base de lengua. En la intervención, tras la separación de la tumoración del eje vascular izquierdo y de los pares X, XI y XII, se visualizó una tumoración de consistencia media-dura de 6 cm

de diámetro localizada en el espacio parafaríngeo preestíleo derecho que se extendía hasta las áreas II-III derechas íntimamente adherido a la vena yugular interna.

El resultado anatómico-patológico de la pieza quirúrgica determinó el diagnóstico de carcinoma de células acinares, con un patrón predominante papilar quístico. Los cortes histológicos mostraban una mucosa lingual con infiltración del tejido conjuntivo subepitelial por una proliferación celular de estirpe epitelial glandular salivar, constituida por microtúbulos o cordones celulares revestidos o compuestas por células poligonales con citoplasma débilmente eosinófilo, y con núcleos con ovales que presentan atipia ligera y alguna mitosis aislada. Destacaba la prominente matriz mucopolisacárida Azul Alcian positiva que presenta el tumor, aunque también se identifican algunas áreas eosinófilas de aspecto hialino.

El paciente recibió tratamiento complementario con Radioterapia, lo cual fue determinado en el Comité de tumores de cabeza y cuello del HCUV.

CASO 2- ABORDAJE ENDOSCÓPICO NASAL (FIGURAS 4 A 9)

La segunda paciente fue una paciente de 42 años que acudió a consulta de Neurología por episodios de migraña y alteración de la visión. Se le solicitó en ese momento una prueba de imagen para estudio de la sintomatología y se le remitió a servicio de Otorrinolaringología del HCUV tras obtener el resultado.

En la RM se describía a nivel del espacio masticador izquierdo/fosa infratemporal, entre los músculos temporal y pterigoideo lateral, una tumoración ovalada, de límites bien definidos, hiperintensa en secuencias potenciadas en T2, gradiente, STIR y difusión, discretamente heterogénea, con marcado realce tras la administración de contraste intravenoso, que colindaba con el ala mayor del esfenoides y la pared posterior del seno maxilar izquierdo condicionando remodelación de las estructuras, encontrándose próximo a la ventana oval a la salida

DOS TIPOS DE NEOFORMACIONES DEL ESPACIO PARAFARÍNGEO, DOS EJEMPLOS DE ABORDAJES
(EXTERNO Y ENDOSCÓPICO)

LOSADA-CAMPA J, TORRES-MORIENTES LM, PASTOR-VÁZQUEZ JF ET AL.

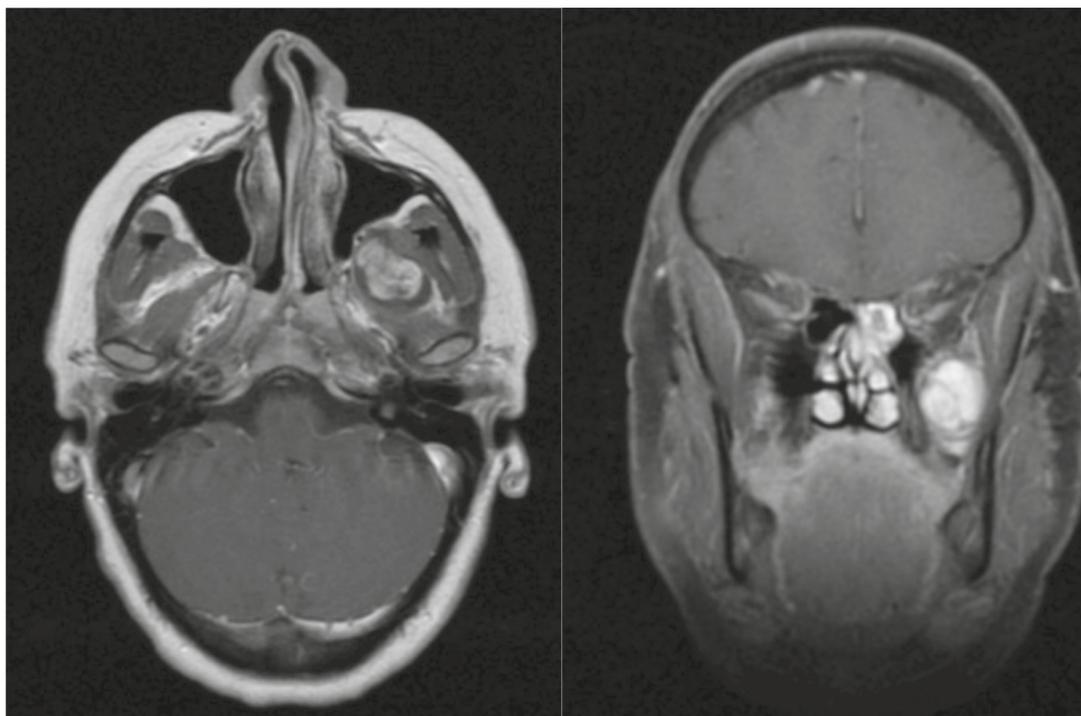


Figura 4. Imágenes prequirúrgicas (RM corte axial y coronal) de caso 2.

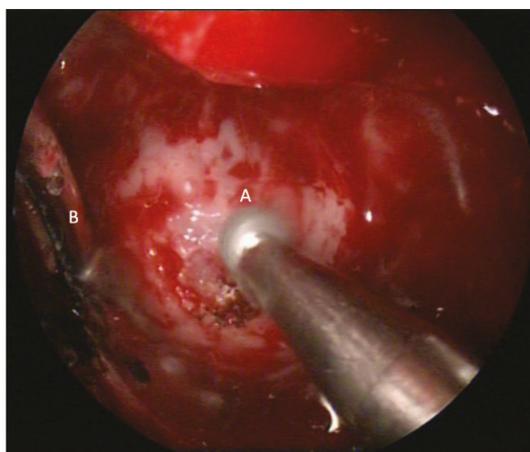


Figura 5. Imágenes quirúrgicas del caso 2. Abordaje transmaxilar transpterigoideo izquierdo. A) Pared posterior de seno maxilar izquierdo. B) Apófisis pterigoides.

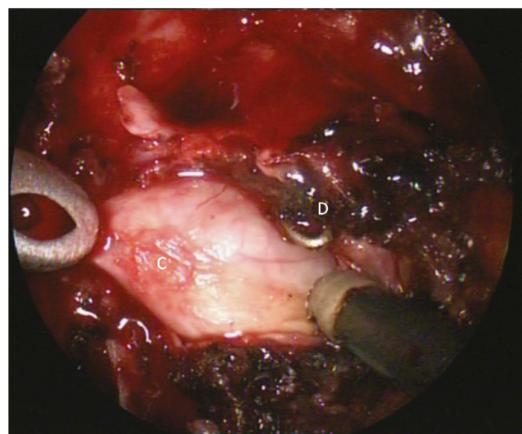


Figura 6. Imágenes quirúrgicas del caso 2. Localización y exposición de tumoración en fosa pterigopalatina/infratemporal. C) Schwannoma D) Cauterización y clipado de arteria maxilar interna.

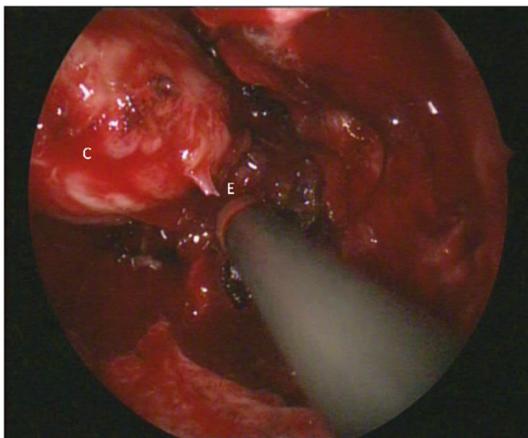


Figura 7. Imágenes quirúrgicas del caso 2. Tumoración (C) pediculada a fascículo vasculonervioso (E).

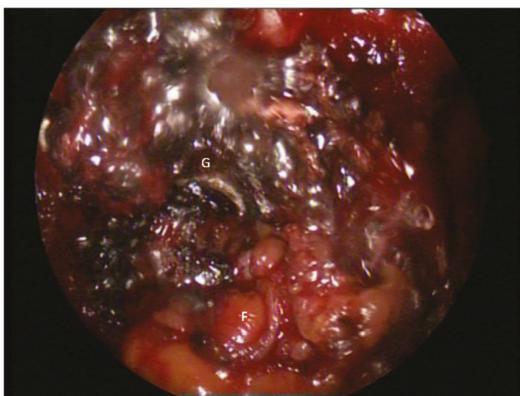


Figura 8. Imágenes quirúrgicas del caso 2. Resección tumoral completa en monoblock. Fosa pterigopalatina (F) e infratemporal (G).

de la rama (V3 del trigémino). Se concluyó en este mismo estudio que se trataba de un tumor neurogénico (schwannoma) de ramas temporales profundas de la división mandibular del nervio trigémino.

Posteriormente, se solicitó una nueva prueba de imagen, en este caso un TC, como imagen prequirúrgica para navegación durante la cirugía. En este caso se describía la tumoración ya conocida en fosa pterigopalatina izquierda, hipodensa

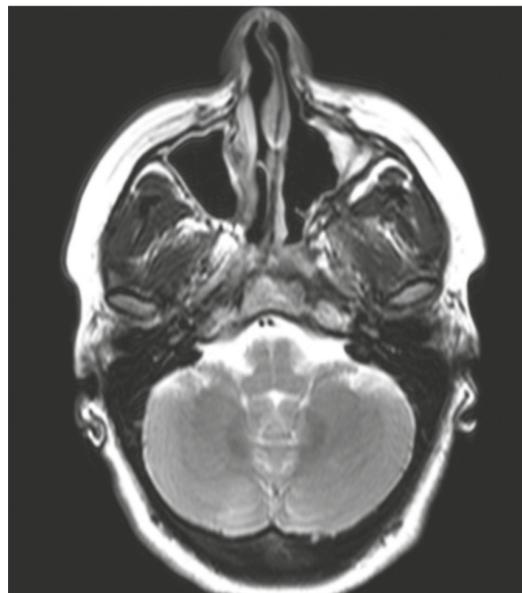


Figura 9. Imágenes postquirúrgicas (RM) del caso 2. 1 año tras intervención.

respecto al músculo, que contactaba el vientre lateral del digástrico y el masetero, abombando la pared posterior del seno maxilar, sin identificar remodelado óseo, erosión o signos de infiltración muscular. Se concluyó no observar otras alteraciones significativas en el estudio.

La paciente fue intervenida mediante cirugía endoscópica nasosinusal (abordaje transpterigoideo de la fosa infratemporal). Se objetivó una protrusión de pared posterior de seno maxilar izquierdo y se visualizó y resecó una tumoración encapsulada, dura, que ocupaba fosa pterigopalatina e infratemporal izquierda, desde el músculo pterigoideo lateral al músculo temporal.

En la anatomía patológica se describió una formación nodular ovoidea polipoide, que medía 1,8 x 1,8 x 1,5 cm, constituida por un tejido de coloración blanquecina amarillenta y consistencia elástica. Los cortes histológicos mostraban una proliferación celular de características benignas, de estirpe neural, bien delimitada y encapsulada

con un patrón histológico vagamente nodular. Presentaba áreas con densidad celular variable, compuestas por células elongadas que se disponían en una matriz laxa o formando empalizadas. Por lo que el estudio anatómico-patológico concluyó que esta tumoración de fosa pterigopalatina se correspondía con un schwannoma.

La paciente requirió un ingreso en el HCUV durante 3 días. Tras la cirugía la paciente únicamente refirió anestesia de la zona del nervio palatino mayor.

Tras casi dos años de la cirugía, el día 14 de diciembre de 2022, se realizó nueva prueba de imagen, en este caso una nueva RM, donde no se apreciaba resto tumoral.

DISCUSIÓN

El tratamiento de los tumores parafaríngeos sigue siendo en la actualidad la exéresis quirúrgica. A lo largo de los años se han descrito gran variedad de técnicas quirúrgicas para la resolución de estas neoplasias, que abarcan desde abordajes puramente externos a abordajes endoscópicos o bien combinados en casos seleccionados [1-7].

Los abordajes externos han sido clásicamente el tipo de abordaje quirúrgico más utilizado. Su principal ventaja la exposición completa el campo quirúrgico, con una óptima visión de las estructuras vasculares y neurológicas. Sus principales inconvenientes son la gran repercusión sobre la funcionalidad de los tejidos, complicaciones postoperatorias, tiempo quirúrgico y tiempo de ingreso hospitalario [4-7].

Los abordajes endoscópicos tanto endonasales como transorales evitan la amputación mandibular y reducen las lesiones neurovasculares. Evitan también las cicatrices faciales conpostoperatorio más cómodo y menos doloroso para el paciente [5]. Los principales son una limitada visibilidad, un menor control de la ACI en caso de lesión, la posibilidad de derrame tumoral (adenoma pleomorfo) y una aplicación limitada [9].

Los abordajes combinados (endoscópico-externo, endoscópico-endoscópico) deben tenerse en cuenta a la hora de planificar cirugías debido a la posibilidad de participación de dos cirujanos simultáneamente, además de un mayor espacio quirúrgico y un mayor control del segmento parafaríngeo de la ACI durante la cirugía transnasal endoscópica [4].

Atendiendo a la gran variedad histológica de las neoformaciones de este espacio, cabe destacar que cada caso y cada paciente deben ser individualizados, teniendo en cuenta principalmente la localización y el tamaño del tumor.

El primer paciente requirió un abordaje externo debido a que presentaba un tumor en una localización más inferior, que requería un gran control de la ACI debido a su proximidad. Además, se utilizó un abordaje transoral para la zona de la base de la lengua que aportaba una mejor exposición. Este paciente requería una resección amplia, al presentar una tumoración maligna, que requirió tratamiento complementario con radioterapia tras la exéresis quirúrgica. El ingreso de este paciente fue prolongado, durante 10 días requiriendo dos días de intubación orotraqueal postquirúrgica con una recuperación y rehabilitación difíciles debido a la amplitud de la resección, complejidad para la alimentación oral y curas largas y laboriosas.

La segunda paciente presentaba una tumoración de gran tamaño, pero características anatómico-patológicamente descritas como benignas, a pesar de la importante clínica que le producía. El abordaje endoscópico endonasal fue el óptimo en este caso debido a que la tumoración se localizaba en la fosa infratemporal, una posición más alta en el espacio parafaríngeo, que tiene una vía directa al ser abordada a través de la nariz. La paciente presentó un postoperatorio relativamente cómodo, de únicamente 3 días de duración, suponiendo un menor tiempo hospitalario y un menor gasto sanitario que el otro paciente. Toleró dieta oral el mismo día de la intervención, sin presentar complicaciones para la misma. La paciente no presenta

importantes deformidades estéticas, como es el caso de los abordajes externos, y no ha requerido tratamiento complementario al haberse resecado la lesión de forma completa.

CONCLUSIONES

Las tumoraciones del espacio parafaríngeo son una patología compleja y de difícil tratamiento. Actualmente, la exéresis quirúrgica completa sigue siendo el tratamiento de elección. Debido a que esta zona anatómica es un de especial complejidad y presenta una amplia variedad de estructuras neurovasculares relevantes, es fundamental un estudio prequirúrgico arduo de las mismas para evitar complicaciones.

Aunque aparentemente las técnicas endoscópicas tienen un gran número de beneficios, especialmente postoperatorios, y cada vez se tienden a realizar más abordajes de este tipo, es fundamental conocer y seguir realizando abordajes externos en aquellos casos que lo precisan, ya que las técnicas endoscópicas no siempre ofrecen una opción quirúrgicamente segura y con la capacidad de exéresis completa de las neoformaciones.

BIBLIOGRAFÍA

1. Fang Y, Wu H, Tan AD, Cheng L. Transcervical endoscopic approach for parapharyngeal space: a cadaver study and clinical practice. *Acta Otolaryngol.* 2020; 140(2):163-169.
2. Basaran B, Polat B, Unsaler S, Uluhan M, Aslan I, Hafiz G. Parapharyngeal space tumours: the efficiency of a transcervical approach without mandibulotomy through review of 44 cases. *Acta Otorhinolaryngol. Ital.* 2014; 34:310-316.
3. Pradeep Pradhan P, Preetam C, Kumar-Parida P, Samal S, Kumar-Samal D. Surgical Management of Parapharyngeal Space Tumours in a Single Tertiary Care Center. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018; 70(4):531-537.
4. Sun X, Yan B, Truong H, Borghei-Razavi H, Snyderman C, Fernandez-Miranda J. A Comparative Analysis of Endoscopic-Assisted Transoral and Transnasal Approaches to Parapharyngeal Space: A Cadaveric Study. *J Neurol Surg B Skull Base.* 2017 14; 79(03): 229-40.
5. Guo D, Sun C, Yin X, Qu H, Dai B, Hu L, Zhou C, Du X. A Retrospective Analysis on the Effects and Complications of Endoscope-Assisted Transoral Approach and Lateral Cervical Approach in the Resection of Parapharyngeal Space Tumors. *Comput Intel Neurosci.* 2022; 2022:1-8.
6. Falcon RT, Rivera-Serrano CM, Miranda JF, et al. Endoscopic endonasal dissection of the infratemporal fossa: anatomic relationships and importance of eustachian tube in the endoscopic skull base surgery. *Laryngoscope* 2011; 121(01):31-41.
7. López F, Suárez C, Vander Poorten V, et al. Contemporary management of primary parapharyngeal space tumors. *Head Neck* 2019; 41(02):522-535.
8. Karkas, A.; Zimmer, L.A.; Theodosopoulos, P.V.; Keller, J.T.; Prades, J.M. Endonasal endoscopic approach to the pterygopalatine and infratemporal fossae. *Eur. Ann. Otorhinolaryngol. Head Neck Dis.* 2020, 138, 391-395.
9. Zanoletti, E.; Mazzoni, A.; Martini, A.; Abbritti, R.V.; Albertini, R.; Alexandre, E.; Baro, V.; Bartolini, S.; Bernardeschi, D.; Bivona, R.; et al. Surgery of the lateral skull base: A 50-year endeavour. *Acta Otorhinolaryngol. Ital.* 2019, 39 (Suppl. 1), S1-S146.
10. Akiyama, O.; Gungör, A.; Middlebrooks, E.H.; Kondo, A.; Arai, H. Microsurgical anatomy of the maxillary artery for extracranial- intracranial bypass in the pterygopalatine segment of the maxillary artery. *Clin. Anat.* 2018, 31, 724-733.
11. Riffat F, Dwivedi RC, Palme C, Fish B, Jani P. Una revisión sistemática de 1143 tumores del espacio parafaríngeo informados durante 20 años. *Oncología Bucal.* 2014; 50(5):421-30.
12. Lien KH, Young CK, Chin SC, Liao CT, Huang SF. Tumores del espacio parafaríngeo: un estudio de caso en serie. *Revista de investigación médica internacional.* 2019; 47(8):4004-13.

ENFISEMA PARAFARÍNGEO TRAS FRACTURA DE LA PORCIÓN TIMPÁNICA DEL HUESO TEMPORAL. DESCRIPCIÓN DE UN CASO

Parapharyngeal emphysema after fracture of the tympanic portion of the temporal bone. A case report

Rocío GARCÍA-FERNÁNDEZ ; Ana María GASÓS-LAFUENTE ; María GUALLAR-LARPA ; María José LAVILLA-MARTÍN DE VALMASEDA 

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

Correspondencia: rogarfer96@gmail.com

Fecha de recepción: 14 de noviembre de 2023

Fecha de aceptación: 25 de noviembre de 2023

Fecha de publicación: 2 de diciembre de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 20 de junio de 2024

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 traumatismos faciales son un motivo de consulta habitual y, aunque la presencia de fracturas asociadas es poco común, en ocasiones es necesario realizar pruebas de imagen que ayuden a descartarlas. La íntima relación entre la articulación temporomandibular y la porción timpánica del hueso temporal explica que determinados traumatismos mandibulares se acompañen de fractura de la porción timpánica del hueso temporal. Descripción: Se presenta el caso de un paciente varón de 79 años al que tras sufrir un traumatismo facial se solicita una tomografía computarizada que muestra fractura de la porción timpánica del hueso temporal izquierdo con enfisema parafaríngeo ipsilateral. Discusión: Este tipo de fracturas suelen producirse en el contexto de traumatismos mandibulares, en los que el cóndilo mandibular impacta sobre la pared anterior del conducto auditivo externo. La realización de la tomografía computarizada es esencial para su diagnóstico, pudiéndose observar aire en torno a la articulación temporomandibular y muy infrecuentemente enfisema parafaríngeo. En los casos descritos en la literatura la actitud adquirida en este tipo de situaciones es expectante. Conclusiones: La complicación de la fractura de la porción timpánica del hueso temporal en forma de enfisema parafaríngeo es muy poco

ENFISEMA PARAFARÍNGEO TRAS FRACTURA DE LA PORCIÓN TIMPÁNICA DEL HUESO TEMPORAL.
DESCRIPCIÓN DE UN CASO

GARCÍA-FERNÁNDEZ R, GASÓS-LAFUENTE M, GUALLAR-LARPA M ET AL.

frecuente. Sin embargo, a pesar de su poca incidencia, en los traumatismos mandibulares hay que tener en cuenta la posible existencia de fracturas asociadas y sus complicaciones.

PALABRAS CLAVE: Enfisema parafaríngeo; traumatismo mandibular; articulación temporomandibular, fractura hueso temporal.

SUMMARY: Introduction and objective: Facial trauma is a common reason for consultation and, although the presence of associated fractures is rare, it is sometimes necessary to perform imaging tests to help rule them out. The intimate relationship between the temporomandibular joint and the tympanic portion of the temporal bone explains that certain mandibular traumas are accompanied by fracture of the tympanic portion of the temporal bone. Description: We present the case of a 79-year-old male patient who, after suffering facial trauma, underwent a computed tomography scan that showed a fracture of the tympanic portion of the left temporal bone with ipsilateral parapharyngeal emphysema. Discussion: This type of fracture usually occurs in the context of mandibular trauma, in which the mandibular condyle impacts the anterior wall of the external auditory canal. Performing a computed tomography scan is essential for its diagnosis, and air can be observed around the temporomandibular joint and very rarely parapharyngeal emphysema. In the cases described in the literature, the attitude acquired in this type of situation is expectant. Conclusions: The complication of the fracture of the tympanic portion of the temporal bone in the form of parapharyngeal emphysema is very rare. However, despite its low incidence, in mandibular trauma the possible existence of associated fractures and their complications must be taken into account.

KEYWORDS: Parapharyngeal emphysema; mandibular trauma; temporomandibular joint; temporal bone fracture.

INTRODUCCIÓN

Los traumatismos faciales son un motivo de consulta habitual en los servicios de urgencias y, aunque la presencia de fracturas asociadas es menos frecuente, su sospecha hace que sea imprescindible la realización de pruebas de imagen que ayuden a descartarlas. [1, 2] El uso de la tomografía computarizada y la resonancia magnética evalúan las estructuras del hueso temporal y permiten evaluar las complicaciones asociadas. [2]

Tradicionalmente, las fracturas del hueso temporal se han clasificado en longitudinales, transversales u oblicuas según la dirección de las líneas de fractura. El hallazgo de una fractura de la porción timpánica del hueso temporal se suele relacionar con traumatismos mandibulares. [3]

La íntima relación entre la articulación temporomandibular y la porción timpánica del hueso temporal explica que determinados traumatismos mandibulares se acompañen

de fractura de la porción timpánica del hueso temporal. [4, 5]

Una complicación muy infrecuente de este tipo de fracturas es el enfisema parafaríngeo, habiéndose publicado casos aislados en la literatura. [6, 7] El primer caso de enfisema parafaríngeo tras traumatismo mandibular se describe en 1998. [6]

DESCRIPCIÓN

Se presenta el caso de un paciente varón de 79 años que acudió a urgencias por traumatismo facial tras una caída accidental en su domicilio, golpeándose el mentón contra el suelo. No refería pérdida de conciencia.

Tras el traumatismo, el paciente presentaba otorragia izquierda, sin otalgia, pérdida auditiva, acúfenos, mareos o vértigos ni otra clínica asociada. No presentaba antecedentes otológicos de interés y como antecedentes médicos refería hipotiroidismo y un accidente cerebrovascular isquémico, motivo

ENFISEMA PARAFARÍNGEO TRAS FRACTURA DE LA PORCIÓN TIMPÁNICA DEL HUESO TEMPORAL.
DESCRIPCIÓN DE UN CASO

GARCÍA-FERNÁNDEZ R, GASÓS-LAFUENTE M, GUALLAR-LARPA M ET AL.

por el cual tenía tratamiento antiagregante con clopidogrel y ácido acetilsalicílico.

En la exploración destacaba la presencia de un hematoma en el mentón (Figura 1) y hemotímpano en el oído izquierdo con restos hemáticos en el conducto auditivo externo. La exploración de los pabellones auriculares era normal.

El weber se lateralizaba al lado izquierdo y la audiometría tonal liminar mostraba hipoacusia de transmisión moderada en el oído izquierdo, con

un GAP de 20dB en todas las frecuencias estudiadas (250-500-1000-2000-4000Hz) y caída en las frecuencias agudas (Figura 2). El oído contralateral presentaba normoacusia con caída en las frecuencias agudas. El resto de la exploración era normal, incluida la palpación cervical, la orofaringoscopia y la fibrolaringoscopia.

Se solicitó una tomografía computarizada de peñascos y se objetivó fractura de la porción timpánica del hueso temporal (pared anterior del CAE izquierdo) con ocupación por densidad de partes blandas en cavidad timpánica y enfiseema subcutáneo izquierdo que se extendía hacia espacio parafaríngeo ipsilateral (Figura 3). La analítica



Figura 1. Hematoma sobre el mentón.

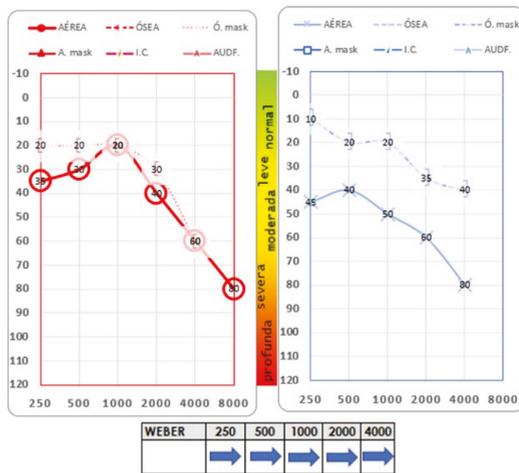


Figura 2. Audiometría tonal liminar (ATL) con auriculares de inserción y Weber izquierdo.

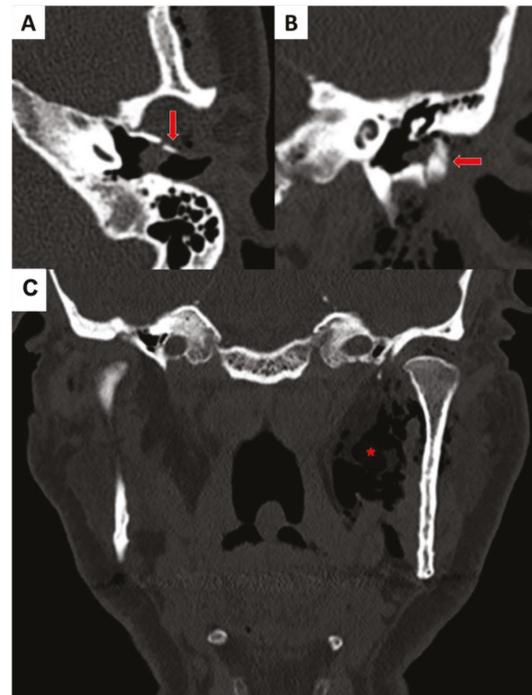


Figura 3. Tomografía computarizada. Peñasco izquierdo en corte axial (A) y coronal (B), donde se observa fractura de la porción timpánica del hueso temporal (flecha). Macizo facial en corte coronal (C), donde se observa aire en torno a la articulación temporomandibular (ATM) izquierda que se extiende hacia el espacio parafaríngeo ipsilateral (asterisco).

sanguínea no mostraba alteraciones reseñables, con un estudio de la coagulación dentro de los parámetros de normalidad.

Dada la ausencia de clínica se mantuvo actitud conservadora, instaurándose tratamiento antibiótico oral por el enfisema parafaríngeo y tópico por la otorragia.

Al mes se reevaluó al paciente, que se mantenía asintomático con resolución completa del hemotímpano y un ligero escalón de la pared anterior del conducto auditivo externo izquierdo. Se realizó nueva audiometría tonal liminar de control, donde se observó la ausencia del GAP que presentaba anteriormente en el oído izquierdo.

DISCUSIÓN

El conducto auditivo externo de una persona adulta tiene una longitud aproximada de entre 25 y 30 mm. Está constituido por una parte cartilaginosa (el tercio externo) y una parte ósea (los dos tercios internos). La pared superior de la parte ósea está conformada por la porción escamosa del hueso temporal, la pared posterior por la porción mastoidea del hueso temporal y la pared antero-inferior por la porción timpánica del hueso temporal [3, 4].

Una estructura muy próxima a la porción timpánica del hueso temporal es la articulación temporomandibular, que se encuentra anterior al conducto auditivo externo. La íntima relación entre estas estructuras explica el posible mecanismo etiopatogénico de las fracturas de la porción timpánica en el contexto de traumatismos mandibulares, ya que el desplazamiento posterior del cóndilo mandibular puede impactar sobre la pared anterior del conducto auditivo externo, ocasionando la fractura de esta porción del hueso temporal [3].

Este tipo de fracturas tras traumatismos mandibulares están asociadas en la mayoría de casos a otras fracturas, aunque también puede encontrarse de forma aislada [4, 5, 8].

El primer caso de enfisema parafaríngeo tras traumatismo mandibular fue descrito en 1998, a

pesar de no visualizarse en la tomografía computarizada claras líneas de fractura a nivel del hueso temporal. [6] En este caso, la clínica que presentó el paciente fue otorragia, otalgia y disfagia, manejándose de forma conservada sin reportarse complicaciones a largo plazo. Más tarde, en 2013, Matos et al describen un caso de enfisema parafaríngeo asociado a la fractura de la porción timpánica del hueso temporal en el contexto de un traumatismo mandibular, con clínica de otorragia y otalgia, instaurándose también un manejo conservador [7].

Aunque la existencia de enfisema parafaríngeo en la fractura de la porción timpánica del hueso temporal es muy poco frecuente y tan solo se han descrito casos aislados en la literatura, la presencia de aire en torno a la articulación temporomandibular es un signo frecuente en este tipo de fracturas, constituyendo un signo indirecto y específico de la fractura del hueso temporal el TAC. [9, 10] En el estudio realizado por Betz et al se observa que la presencia de aire en la fosa de la articulación temporomandibular se asocia de manera estadísticamente significativa con la fractura del hueso temporal, lo que puede explicar el paso de aire desde el conducto auditivo externo hacia la articulación temporomandibular [9].

En los casos de enfisema parafaríngeo tras traumatismo mandibular reportados en la literatura la actitud adquirida es expectante, resolviéndose el proceso de forma autolimitada. [6,8] Las complicaciones a largo plazo que se pueden producir en este tipo de fracturas son principalmente la estenosis del conducto auditivo externo (parcial o completa) y la pérdida de audición, por lo que es importante el seguimiento posterior [4, 11].

CONCLUSIONES

En los traumatismos mandibulares hay que tener en cuenta que la dirección de la fuerza puede provocar el impacto del cóndilo mandibular sobre la pared anterior de conducto auditivo externo. Este hecho podría ocasionar la fractura del porción

timpánica del hueso temporal y, aunque sus complicaciones son poco frecuentes, debe hacerse un seguimiento para evitar secuelas a largo plazo.

BIBLIOGRAFÍA

1. Zayas JO, Feliciano YZ, Hadley CR, Gomez AA, Vidal JA. Temporal bone trauma and the role of multidetector CT in the emergency department. *Radiographics*. 2011;31(6):1741-1755.
2. Kurihara YY, Fujikawa A, Tachizawa N, Takaya M, Ikeda H, Starkey J. Temporal Bone Trauma: Typical CT and MRI Appearances and Important Points for Evaluation. *Radiographics*. 2020;40(4):1148-1162.
3. Chong VF, Fan YF. Technical report. External auditory canal fracture secondary to mandibular trauma. *Clin Radiol*. 2000;55(9):714-716.
4. Burchhardt D, David J, Eckert R, Robinette N, Carron M, Zuliani G. Trauma patterns, symptoms, and complications associated with external auditory canal fractures. *Laryngoscope*. 2015;125(7):1579-1582.
5. Jiang Y, Jiang C, Huang X. Associations between condylar fractures and external auditory canal fracture: A 7-year retrospective study. *J Cranio-maxillofac Surg*. 2022;50(2):140-145.
6. Plaza G, Martínez-San Millán J, Navas C, Martínez-Vidal A. Parapharyngeal emphysema-an unusual complication of temporal bone trauma. *J Laryngol Otol*. 1998;112(3):301-302.
7. Matos J, Oliveira P, Ferreira M, Conde A. Parapharyngeal space emphysema by temporal bone fracture resulting from mandibular trauma. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2013;79(4):525.
8. Altay C, Erdoğan N, Batki O. Isolated tympanic plate fracture frequency and its relationship to mandibular trauma. *Can Assoc Radiol J*. 2014;65(4):360-365.
9. Betz B, Wiener M. Air in the temporomandibular joint fossa: CT sign of temporal bone fracture. *Radiology*. 1991;180(2):463-466.
10. Montaser A, Goyal M, Weiner M. Air in temporomandibular joint: an indirect, specific CT sign of temporal bone fracture in the setting of head trauma. *J Trauma*. 2011;70(4):73.
11. Wood C, Hunt C, Bergen D. Tympanic plate fractures in temporal bone trauma: prevalence and associated injuries. *Am J Neuroradiol*. 2014;35(1):186-190.

