

# ORL

Volumen 15 • Número 4 • 2024

OTORRINOLARINGOLOGÍA  
DOCUMENTACIÓN Y METODOLOGÍA DE INVESTIGACIÓN



eISSN: 2444-7986  
DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.2024154>  
<https://revistas.usal.es/index.php/2444-7986/>



Ediciones Universidad  
**Salamanca**

## EQUIPO DE REDACCIÓN

### DIRECTOR

---

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

### SECRETARIA DE DIRECCIÓN

---

Tránsito FERRERAS FERNÁNDEZ, Universidad de Salamanca, España

### CONSEJO DE REDACCIÓN

---

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

### CONSEJO ASESOR

---

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

## ÍNDICE

---

### ARTÍCULOS ORIGINALES

---

- Amigdalectomía lingual robótica para el diagnóstico del carcinoma escamoso de origen desconocido  
Belén SALVATIERRA-VICARIO, Patricia CORRIOLS-NOVAL,  
Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN, Ramón COBO-DÍAZ, Aida VEIGA-ALONSO,  
Carmelo MORALES-ANGULO, Sergio OBESO-AGÜERA 273
- 
- Complicaciones en cirugía tiroidea y paratiroidea. Serie retrospectiva  
Luis Miguel TORRES-MORIENTES, Eduardo TAMAYO-GÓMEZ, Paula PECIÑA-MELGOSA,  
María Fe MUÑOZ-MORENO, Ana FERNÁNDEZ-RODRÍGUEZ, Jaime SANTOS-PÉREZ 285
- 
- Utilización de la planificación con modelos de anatomía virtual 3D y piezas anatómicas a tamaño real para la cirugía de lesiones óseas en la zona del nasosinusal  
Alda CARDESÍN-REVILLA1, Mariana CAMPOS-MOTAMAYOR, Aina SANSA-PERNA,  
Silvia LÓPEZ-GALERA, Yolanda ESCAMILLA-CARPINTERO, Esther GRANELL-MORENO,  
Carlota ROVIRA-MARTÍNEZ, Rosa ROSELL-FERRER 293
- 

### ARTÍCULOS DE REVISIÓN

---

- Características clínicas y patológicas del tumor de células granulares en cuerda vocal. Revisión de la literatura  
María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ, Jaime SANTOS-PÉREZ,  
Victoria DUQUE-HOLGUERA, María Consolación MARTÍN-PASCUAL,  
Patricia VIVEROS-DÍEZ, Diana Milena SABOYA-ROMERO 301
- 
- Utilización de terapia de presión negativa VAC® en el tratamiento la fascitis necrotizante cervical. Revisión sistemática  
Dolores RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ, Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ,  
Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS 309
- 
- Eficacia de la oxigenoterapia hiperbárica como adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina. Revisión sistemática  
Jesús SÁNCHEZ-LOZANO, Sandra MARTÍNEZ-PIZARRO 319
- 
- Tratamiento quirúrgico de la apnea obstructiva del sueño: adenoamigdalectomía en el adulto  
Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA, Marina CARRASCO-LLATAS,  
Peter BAPTISTA-JARDÍN, Guillermo PLAZA-MAYOR, Alfonso MARCO-GARRIDO,  
Carlos O'CONNOR-REINA 331
- 
- Tratamiento quirúrgico de la apnea obstructiva del sueño: cirugía maxilofacial  
Guillermo PLAZA-MAYOR, Lourdes MANIEGAS-LOZANO, Carlos O'CONNOR-REINA,  
Peter Michael BAPTISTA-JARDÍN, Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA,  
Alfonso MARCO-GARRIDO, Marina CARRASCO-LLATAS 337
- 
- Tratamiento quirúrgico de la apnea obstructiva del sueño más allá de lo habitual: traqueotomía y cirugía bariátrica  
Guillermo PLAZA-MAYOR, Carlos O'CONNOR-REINA, Peter Michael BAPTISTA-JARDÍN,  
Alfonso MARCO-GARRIDO, Marina CARRASCO-LLATAS, Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA 349
-

---

## CASO CLÍNICO

---

Fascitis necrotizante cervical de origen odontógeno. Descripción de un caso

Dolores RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ, Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ,

Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS

355

Tumor de células granulares en cuerda vocal a propósito de un caso

María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ, Jaime SANTOS-PÉREZ,

Victoria DUQUE-HOLGUERA, María Consolación MARTÍN-PASCUAL,

Patricia VIVEROS-DÍEZ, Diana Milena SABOYA-ROMERO

361

**TABLE OF CONTENTS****ORIGINAL ARTICLE**

Robot assisted lingual tonsillectomy for the diagnosis of unknown primary squamous cell carcinoma Belén SALVATIERRA-VICARIO, Patricia CORRIOLS-NOVAL, Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN, Ramón COBO-DÍAZ, Aida VEIGA-ALONSO, Carmelo MORALES-ANGULO, Sergio OBESO-AGÜERA	273
Complications in thyroid and parathyroid surgery. Retrospective series Luis Miguel TORRES-MORIENTES, Eduardo TAMAYO-GÓMEZ, Paula PECCIÑA-MELGOSA, María Fe MUÑOZ-MORENO, Ana FERNÁNDEZ-RODRÍGUEZ, Jaime SANTOS-PÉREZ	285
Planning with 3D virtual anatomy models and life-size anatomical pieces for the surgery of bone lesions in the naso-sinus area Alda CARDESÍN-REVILLA1, Mariana CAMPOS-MOTAMAYOR, Aina SANSA-PERNA, Silvia LÓPEZ-GALERA, Yolanda ESCAMILLA-CARPINTERO, Esther GRANELL-MORENO, Carlota ROVIRA-MARTÍNEZ, Rosa ROSELL-FERRER	293

**REVIEW ARTICLES**

Clinical and pathological characteristics of granular cell tumor in the vocal cord. A literature review María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ, Jaime SANTOS-PÉREZ, Victoria DUQUE-HOLGUERA, María Consolación MARTÍN-PASCUAL, Patricia VIVEROS-DÍEZ, Diana Milena SABOYA-ROMERO	301
Necrotizing fasciitis of the neck management with vacuum assisted therapy (VAC). Systematic review Dolores RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ, Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ, Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS	309
Efficacy of hyperbaric oxygen therapy as an adjuvant in sudden sensorineural hearing loss. Systematic review Jesús SÁNCHEZ-LOZANO, Sandra MARTÍNEZ-PIZARRO	319
Surgical treatment of obstructive sleep apnea: adenotonsillectomy in adults Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA, Marina CARRASCO-LLATAS, Peter BAPTISTA-JARDÍN, Guillermo PLAZA-MAYOR, Alfonso MARCO-GARRIDO, Carlos O'CONNOR-REINA	331
Surgical treatment of obstructive sleep apnea: maxillofacial surgery Guillermo PLAZA-MAYOR, Lourdes MANIEGAS-LOZANO, Carlos O'CONNOR-REINA, Peter Michael BAPTISTA-JARDÍN, Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA, Alfonso MARCO-GARRIDO, Marina CARRASCO-LLATAS	337
Surgical treatment of obstructive sleep apnea: tracheostomy and bariatric surgery Guillermo PLAZA-MAYOR, Carlos O'CONNOR-REINA, Peter Michael BAPTISTA-JARDÍN, Alfonso MARCO-GARRIDO, Marina CARRASCO-LLATAS, Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA	349

---

**CLINICAL CASE**

---

Cervical necrotizing fasciitis of odontogenous origin. A case report

Dolores RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ, Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ, Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS 355

---

Granular cell tumor in the vocal cord: a case-based

María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ, Jaime SANTOS-PÉREZ,  
Victoria DUQUE-HOLGUERA, María Consolación MARTÍN-PASCUAL,  
Patricia VIVEROS-DÍEZ, Diana Milena SABOYA-ROMERO

361

---

## AMIGDALECTOMÍA LINGUAL ROBÓTICA PARA EL DIAGNÓSTICO DEL CARCINOMA ESCAMOSO DE ORIGEN DESCONOCIDO

### *Robot assisted lingual tonsillectomy for the diagnosis of unknown primary squamous cell carcinoma*

Belén SALVATIERRA-VICARIO<sup>1</sup>; Patricia CORRIOLS-NOVAL<sup>1</sup>; Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN<sup>1</sup>; Ramón COBO-DÍAZ<sup>1</sup>; Aida VEIGA-ALONSO<sup>1</sup>; Carmelo MORALES-ANGULO<sup>1</sup>; Sergio OBESO-AGÜERA

*Hospital Universitario Marqués de Valdecilla. Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello.*

*Santander. España*

*Correspondencia: belensalvatierravicario9@gmail.com*

Fecha de recepción: 11 de abril de 2024

Fecha de aceptación: 23 de octubre de 2024

Fecha de publicación: 28 de octubre de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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: La prevalencia del carcinoma de origen desconocido (COD) de cabeza y cuello ha aumentado en los últimos años debido al incremento en la incidencia del carcinoma epidermoide de orofaringe Virus de Papiloma Humano (VPH) positivo, que frecuentemente puede debutar con adenopatías cervicales con un tumor primario no evidente en la exploración física. En este contexto, la cirugía transoral robótica (TORS) ha sido incorporada como una herramienta diagnóstica para la búsqueda del tumor primario en la región orofaríngea, así como una alternativa terapéutica para los tumores de dicha localización. El objetivo del presente estudio es analizar nuestros resultados y la utilidad de la TORS en el proceso diagnóstico y terapéutico del COD en cabeza y cuello. Método: Se ha realizado un estudio retrospectivo en un Hospital terciario del norte de España en el que se incluyeron pacientes con diagnóstico de COD sometidos a una amigdalectomía lingual robótica como parte del protocolo de búsqueda del tumor primario. Se han analizado diferentes variables clínico-patológicas, así como la positividad a VPH. Resultados: Se han incluido 9 pacientes en el estudio; la edad media al diagnóstico fue de 60 años (rango 43-75).

En un 44 % de los pacientes, el estudio de la metástasis cervical reflejó positividad para p16. En dos de estos casos, se identificó el tumor primario en la pieza quirúrgica de la amigdalectomía lingual, detectando ADN de VPH. La tasa de complicaciones tras la amigdalectomía lingual *vía* TORS fue baja, principalmente de grado I-II según la clasificación de Clavien-Dindo. Discusión y conclusiones: La amigdalectomía lingual robótica puede contribuir a la identificación del tumor primario en el COD, especialmente en los casos VPH-positivos. La TORS contribuye a una estadificación correcta del proceso oncológico y a un tratamiento menos agresivo y con menos secuelas.

**PALABRAS CLAVE:** carcinoma escamoso de cabeza y cuello; virus del papiloma humano; carcinoma escamoso de origen desconocido; carcinoma de orofaringe VPH positivo; TORS

**SUMMARY:** Introduction and objective: The prevalence of carcinoma of unknown primary (CUP) metastatic to cervical lymph nodes has increased in the last decade because of the risen incidence of oropharyngeal squamous cell carcinoma related to human papillomavirus (HPV) (OPSCC). Transoral robotic surgery (TORS) has been included as a therapeutic and diagnostic tool in head and neck surgery and in CUP specifically. The aim of our study is to analyze the results and profitability of TORS in the diagnostic and therapeutic management of CUP in head and neck carcinomas. Method: A retrospective study has been conducted in a tertiary hospital in the North of Spain. Patients diagnosed with CUP who underwent robot assisted lingual tonsillectomy as a diagnostic procedure of the primary tumor were included. Clinicopathological variables were analyzed, such as the presence of HPV. Results: Nine patients were included in our study. The average age at diagnosis was 60 years old. The study of cervical adenopathy showed positivity to p16 in 44 % of the cases. The primary tumor was found at the base of tongue in two of those cases, both HPV DNA positive. Complication rate of TORS BOT was low, mainly I-II sequelae according to Clavien-Dindo classification. Discussion and conclusions: Robot assisted lingual tonsillectomy is a key tool in identifying the primary tumor in CUP, especially if HPV related. TORS helps an accurate staging of the oncological process and allows a less aggressive complementary treatment with fewer sequelae.

**KEYWORDS:** head and neck cancer; human papillomavirus; squamous cell carcinoma of unknown origin; HPV-positive oropharyngeal carcinoma; TORS

## INTRODUCCIÓN

La metástasis cervical por carcinoma de origen desconocido (COD) representa entre un 2 a un 5 % de todos los casos de cáncer de cabeza y cuello (CCC); siendo estos, en un 15 % un carcinoma epidermoide [1, 2]. Definimos como COD a una metástasis por carcinoma epidermoide en los ganglios linfáticos cervicales, en los que no se detecta un tumor primario. Este, puede evadir la detección inicial, generalmente, por una combinación de tamaño y localización [3].

En las últimas décadas se ha evidenciado un aumento de la incidencia del COD debido a un

aumento de la incidencia del carcinoma escamoso de orofaringe virus del papiloma humano positivo (CEO-VPH positivo) [4]. Concretamente, la prevalencia específica de VPH en el COD de cabeza y cuello oscila entre un 22 a un 91 % a nivel mundial [5]. En consecuencia, se está produciendo un cambio de tendencia de este tipo de tumores. En Estados Unidos se ha evidenciado un aumento del 225 % del carcinoma epidermoide de cabeza y cuello VPH positivo desde 1988 hasta 2004, así como un descenso del 50 % de los tumores VPH negativos [6]. Este cambio de frecuencia se debe a una reducción de hábitos tóxicos, como el tabaco

y alcohol; no obstante, respecto a las conductas sexuales, se ha evidenciado una menor concienciación respecto al uso de medidas de protección, lo cual ha propiciado el incremento de enfermedades de transmisión sexual y tumores relacionados con VPH [6].

El CEO-VPH positivo, por su parte, se suele localizar en la región de la orofaringe con presencia de tejido linfoide, como las criptas del epitelio de la amígdala palatina o lingual. Dichas localizaciones, pueden quedar ocultas en la exploración física, dificultando así el diagnóstico del tumor primario [7]. Además, el CEO-VPH positivo puede presentar una gran diseminación linfática regional, incluso en tumores de muy pequeño tamaño [7].

A nivel diagnóstico, la detección mediante inmunohistoquímica de la expresión de p16 se considera un marcador fiable de la presencia de VPH (aunque aproximadamente el 15 % de los tumores p16 positivos presenta negatividad del ADN VPH) [5]; que es, en este momento, el factor pronóstico independiente más importante del carcinoma epidermoide de orofaringe. Si bien, se debe destacar la posibilidad de falsos positivos de p16, por lo que se recomienda la determinación de ADN del VPH mediante PCR de la muestra de forma sistemática [5]. Este marcador, al igual que el ADN del Virus de Epstein-Barr (VEB), son dos herramientas que fundamentales en el diagnóstico topográfico del COD; ya que generalmente el VPH se relaciona con el CEO y el VEB con el carcinoma de nasofaringe [5-7].

Actualmente, no existe un consenso general acerca del manejo diagnóstico óptimo del COD. La Sociedad Americana de Oncología Clínica (ASCO) [8] recomienda una exploración física exhaustiva con endoscopia flexible asistida por NBI (*Narrow Banding Imaging*), biopsia aspiración con aguja fina o gruesa de la adenopatía cervical sospechosa cuyo estudio debe incluir el análisis de VPH y VEB. La primera prueba de imagen a realizar recomendada por la ASCO es la tomografía computarizada (TC) con contraste, seguido de la tomografía de emisión

de positrones (PET) si el primario no es evidente ni en la exploración física ni en el TC [8]. Para continuar con el proceso diagnóstico, recomiendan la realización de una exploración completa del tracto aerodigestivo superior bajo anestesia general, así como biopsias randomizadas de base de lengua, nasofaringe y amigdalectomía palatina [8]. En los últimos años se ha evidenciado una mejoría de las tasas diagnósticas del tumor primario gracias al avance de las técnicas de imagen y la endoscopia asistida por NBI. Sin embargo, a pesar de una búsqueda exhaustiva del mismo, las tasas diagnósticas son poco esperanzadoras, de aproximadamente el 50 % según las últimas series [3, 7, 9].

La cirugía transoral asistida por robot (TORS), habitualmente realizada mediante la plataforma robótica Da Vinci (*Intuitive Surgical, Sunnyvale, CA, USA*), se ha convertido en un elemento diagnóstico cada vez más empleado en el COD en la última década. Esta herramienta quirúrgica permite realizar de forma segura y eficaz una amigdalectomía lingual, que aporta un mayor tejido histológico sobre el que identificar un potencial tumor primario. Varios estudios han demostrado su eficacia en el diagnóstico del COD, especialmente en aquellos relacionados con la infección por VPH [10-12].

El objetivo de nuestro estudio es analizar los resultados obtenidos tras la realización de una amigdalectomía lingual asistida por TORS, así como su utilidad en el proceso diagnóstico y terapéutico del COD en cabeza y cuello.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se ha realizado un estudio retrospectivo descriptivo en el Hospital Universitario Marqués de Valdecilla (HUMV) de Santander (Cantabria, España) de los pacientes diagnosticados de un COD que han sido sometidos a amigdalectomía lingual asistida por robot Da Vinci, como protocolo de búsqueda del tumor primario, desde 2016 hasta 2023. Se ha realizado un análisis de las variables

demográficas de los pacientes incluidos; la edad, sexo, hábitos tóxicos, antecedentes personales y diferentes variables clínico-patológicas.

Se realizó, inicialmente, una exploración física exhaustiva de cabeza y cuello, incluyendo una videofibroscoopia flexible asistida por luz NBI. Para el estudio de la adenopatía cervical se realizó una biopsia con aguja gruesa bajo control ecográfico. En caso de positividad para carcinoma epidermoide, se analizó mediante inmunohistoquímica la expresión de p16 y la presencia de ADN de VPH y VEB mediante PCR. Como parte del protocolo de búsqueda del tumor primario se realizaron TC, PET, y RM en casos seleccionados. El estudio se completó con una exploración endoscópica bajo anestesia general, amigdalectomía bilateral, amigdalectomía lingual mediante TORS y biopsias randomizadas de nasofaringe. En nuestro centro, dada la baja disponibilidad del robot da Vinci, durante este periodo de tiempo no se pudo ofrecer una amigdalectomía lingual asistida por TORS a todos los pacientes con COD. La amigdalectomía lingual se realizó sobre la totalidad de la base de la lengua, así como el repliegue glosotonsilar. Las piezas quirúrgicas fueron marcadas en función de la lateralidad.

El presente estudio se completó con un análisis de las complicaciones postoperatorias de la TORS de base de lengua según la clasificación de Clavien-Dindo [13].

Todos los datos se han analizado de forma descriptiva con el programa Excel. El estudio fue aprobado por el Comité de Ética de la Investigación con Medicamentos y productos sanitarios de Cantabria (CEIM).

## RESULTADOS

Se incluyeron 9 pacientes en nuestro estudio desde 2016 hasta la actualidad. La edad media al diagnóstico fue de 60 años (rango 43-75 años); el 100 % de los pacientes incluidos eran varones. Un 90 % tenían hábitos tóxicos de consumo de tabaco

y alcohol. Un caso tenía como antecedente un carcinoma epidermoide de cuerda vocal (T1N0M0) que se trató con radioterapia 13 años antes del debut del COD.

No se evidenciaron lesiones sugestivas de malignidad en la exploración física ni en la videofibroscoopia asistida con luz NBI. Al 100 % de los pacientes se les realizó TC y PET. En un caso se evidenció una hipertrofia de amígdala lingual y se completó el estudio con una RM, en la que no se encontraron hallazgos significativos.

El estudio histopatológico de 4 de las muestras cervicales mostró positividad para p16 (45 %), que fue confirmado posteriormente con la detección mediante PCR del ADN de VPH. El 90 % de los pacientes fueron inicialmente clasificados en estadio IV.

Las variables demográficas y las pruebas complementarias empleadas en el protocolo de búsqueda del tumor primario aparecen reflejadas en la Tabla 1.

A 5 pacientes (55 %) se les realizó un primer procedimiento consistente en endoscopia bajo anestesia general, amigdalectomía bilateral y biopsias randomizadas de nasofaringe y base de lengua. En dichos casos, los resultados de anatomía patológica de las piezas quirúrgicas fueron negativas para la localización del tumor primario. A este subgrupo, en un segundo tiempo, se le realizó una amigdalectomía lingual asistida por robot. A los 4 pacientes restantes (45 %), se les realizó una endoscopia bajo anestesia general, exploración orofaríngea *vía* TORS, amigdalectomía bilateral, amigdalectomía lingual y biopsia de cavum en un único procedimiento quirúrgico. En la totalidad de nuestra muestra se realizó un vaciamiento cervical como parte del tratamiento del COD, en uno de los casos, dicho procedimiento se realizó en un segundo tiempo quirúrgico.

En dos de los pacientes (22 %) la amigdalectomía lingual *vía* TORS mostró positividad para carcinoma epidermoide. El tamaño tumoral fue de 1 cm de diámetro y 3 mm de espesor y otro de

AMIGDALECTOMÍA LINGUAL ROBÓTICA PARA EL DIAGNÓSTICO DEL CARCINOMA ESCAMOSO DE ORIGEN DESCONOCIDO

SALVATIERRA-VICARIO B, CORRIOLS-NOVAL P, RODRÍGUEZ-MARTÍN M ET AL.

Tabla 1. Variables demográficas de los pacientes, pruebas complementarias realizadas, anatomía patológica del ganglio linfático y estadio al diagnóstico

Paciente/edad al dx/ género	Tóxicos	AP ORL	PPCC	AP ganglio cervical (p16 y VPH)	Estadio al diagnóstico
#1 69/varón	Tabaco OH	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 +</li> <li>• VPH: poca muestra</li> </ul>	IVA
#2 68/varón	Tabaco OH	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 -</li> <li>• VPH: 70 +</li> </ul>	IVB
#3 53/varón	Tabaco OH	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 -</li> <li>• VPH -</li> </ul>	IVA
#4 60/varón	Tabaco OH	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 -</li> <li>• VPH -</li> </ul>	IVA
#5 57/varón	Tabaco	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 +</li> <li>• VPH: 16+</li> </ul>	IVA
#6 49/varón	Tabaco	No	TC, PET, RM	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 +</li> <li>• VPH +</li> </ul>	IVA
#7 75/varón	Tabaco OH	Ca. CVI (T1N0M0)	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 +</li> <li>• VPH +</li> </ul>	IVB
#8 68/varón	Tabaco OH	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 -</li> <li>• VPH -</li> </ul>	IVB
#9 43/varón	No	No	TC, PET	<ul style="list-style-type: none"> <li>• p16 -</li> <li>• VPH -</li> </ul>	I

Dx: diagnóstico. OH: alcohol. AP: antecedentes personales. PPCC: pruebas complementarias.

2 cm de diámetro y 1 mm de espesor. En uno de los casos la TORS se realizó en un primer tiempo, y en otro, en un segundo tiempo. Ambas piezas fueron positivas para p16 tanto en la muestra inicial de la adenopatía como en la muestra de la pieza quirúrgica, permitiendo la re-estadificación de sendos pacientes en un carcinoma epidermoide de base de lengua VPH y p16 positivo, en estadio I y III.

El análisis histopatológico de una de las piezas quirúrgicas evidenció un carcinoma escamoso indiferenciado, así como positividad para VEB, diagnosticando a dicho paciente de un carcinoma epidermoide de cavum pT1pN1M0, en estadio I. Los procedimientos realizados como parte del protocolo de búsqueda del tumor primario y sus resultados quedan reflejados en la Tabla 2.

El tiempo medio de ingreso fue de 6 días (rango de 2-19). En un caso fue necesario el

emplazamiento de sonda nasogástrica por disfagia severa y el tiempo medio hasta el inicio de la tolerancia oral fue de 3 días (rango 1-14). En ningún caso fue necesaria la reintervención o el reingreso tras la amigdalectomía lingual asistida por TORS. Siete pacientes fueron extubados en el postoperatorio inmediato y en dos casos se mantuvo la intubación orotraqueal durante 4 y 24 horas respectivamente. No se realizó traqueotomía a ninguno de los pacientes incluidos en nuestro estudio. Las complicaciones postquirúrgicas según la clasificación de Clavien-Dindo quedan recogidas en la Tabla 3.

El 100 % de los pacientes se trató con quimioterapia y radioterapia complementarias. Un 78 % de los pacientes están vivos y libres de enfermedad en el momento de redacción del presente trabajo.

**AMIGDALECTOMÍA LINGUAL ROBÓTICA PARA EL DIAGNÓSTICO DEL CARCINOMA  
ESCAMOSO DE ORIGEN DESCONOCIDO**

SALVATIERRA-VICARIO B, CORRIOLS-NOVAL P, RODRÍGUEZ-MARTÍN M ET AL.

Tabla 2. Protocolo de búsqueda del tumor primario: procedimientos realizados y análisis histológico

Paciente	Procedimiento 1	Procedimiento 2	Resultado AP 1	Resultado AP 2
#1	Amigdalectomía BL+Bx+EAG	TORS: AL	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 positivo</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Base de lengua: Negativo</li> </ul>
#2	Amigdalectomía BL+Bx +EAG	TORS: AL	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 negativo</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Base de lengua: Negativo</li> </ul>
#3	Amigdalectomía BL+Bx +EAG	TORS: AL	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 negativo</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Base de lengua: Negativo</li> </ul>
#4	Amigdalectomía BL+Bx+EAG	TORS: AL	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 negativo</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Base de lengua: negativo</li> </ul>
#5	Amigdalectomía BL+Bx+EAG	TORS: AL	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 positivo</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Base de lengua: Positivo</li> </ul>
#6	No realizado	TORS: orofaringectomía+AL+Biopsia cavum+EAG	No realizado	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 positivo</li> </ul>
#7	No realizado	TORS: orofaringectomía+AL+Biopsia cavum+EAG	No realizado	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Base de lengua: positivo</li> <li>• Adenopatía: p16 positivo</li> </ul>
#8	No realizado	TORS: orofaringectomía+AL+Biopsia cavum+EAG	No realizado	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Negativo</li> <li>• Adenopatía: p16 negativo</li> </ul>
#9	No realizado	TORS: orofaringectomía+AL+Biopsia cavum+EAG	No realizado	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Cavum: positivo</li> <li>• VEB: positivo</li> </ul>

BL: bilateral. Bx: biopsia randomizada cavum y amígdala lingual. EAG: endoscopia bajo anestesia general. AL: amigdalectomía lingual.

Tabla 3. Clasificación de complicaciones postquirúrgicas de Clavien-Dindo

Grado	Definición	Complicación	Porcentaje
I	Cualquier desviación del dolor postoperatorio normal sin intervención <sup>a</sup>	Dolor	100 %
II	Requiere tratamiento farmacológico	Disfagia leve que precisa de SNG	11 %
III	Precisa de intervención (quirúrgica, endoscópica o radiológica)	-	0 %
IIIa	Sin AG		
IIIb	Con AG		
IV	Complicación potencialmente mortal (necesidad de UCI)	-	0 %
IVb	Disfunción de un solo órgano		
IVb	Disfunción multiorgánica		
V	Muerte de un paciente	-	0 %

<sup>a</sup>: sin la necesidad de tratamiento farmacológico o intervenciones quirúrgicas, endoscópicas y radiológicas. Incluye antieméticos, antipiréticos, analgésicos, diuréticos y electrolitos y fisioterapia. También incluye las infecciones de la herida abierta.

## DISCUSIÓN

En las últimas décadas se han producido grandes avances para mejorar el diagnóstico y tratamiento del COD. Entre ellos se ha implantado la cirugía transoral robótica como un elemento tanto diagnóstico, como terapéutico. La utilidad de este radica en la importancia de la identificación del tumor primario ya que permite la de-intensificación del tratamiento de estos pacientes. El COD, es un tumor infrecuente en el área de cabeza y cuello, no obstante, se asocia a una elevada morbimortalidad. Su manejo conlleva un tratamiento complementario de quimio y radioterapia que engloba la totalidad del área faringolaríngea para tratar el primario no identificado. Por consiguiente, la localización del tumor primario es crucial para realizar una radioterapia de intensidad modulada (IMRT) y reducir potenciales toxicidades de los tratamientos [14].

La incidencia del COD está aumentando como consecuencia del aumento del CEO-VPH positivo, estos tumores suelen asociar una baja carga tumoral y una mayor supervivencia específica en comparación con los tumores VPH negativos. Asimismo, y ya que muchos de los COD se localizan finalmente en la orofaringe, existe un porcentaje relativamente elevado de CEO-VPH positivos que se presentan con un tumor primario oculto en la exploración física [10, 14].

El proceso diagnóstico pre-quirúrgico del COD, en consecuencia, también ha cambiado significativamente en los últimos años gracias a la introducción de la endoscopia asistida por NBI, el TC, la RM, el PET y más recientemente el análisis del marcador p16 y el ADN de VPH [9-13]. Debido a su fácil acceso, disponibilidad y bajo coste, el TC con contraste es, normalmente, la primera prueba de imagen diagnóstica empleada [15]. No obstante, la RM está siendo cada vez más utilizada debido a su mayor resolución, delimitación de los márgenes del tumor y una mayor capacidad de detección de tumores pequeños de orofaringe en

pacientes con adenopatías cervicales p16 positivas [15]. El rendimiento diagnóstico del TC y/o RM para la detección del tumor primario en pacientes con una exploración física anodina oscila, según algunas series, entre un 30 a un 50 % [16, 17]. En este punto, hay una clara discrepancia en la literatura publicada; en un metaanálisis publicado por Ye et al. [14] en el que se compara el rendimiento diagnóstico del TC frente a la RM en el COD, se objetiva una mayor sensibilidad del TC frente a la RM, pero una menor especificidad.

El PET, por su parte, es un elemento clave en el paradigma diagnóstico del tumor primario del COD. Se han reportado porcentajes de detección del tumor primario que oscilan entre un 17 % a un 55 % [17]. Otros estudios describen una sensibilidad del PET/TC que oscila entre un 80 % a un 90 % y una especificidad de hasta el 90 % [15]. No obstante, el PET/TC tiene limitaciones en la localización de tumores primarios de menos de 10 mm y aquellos localizados en la amígdala lingual o en las criptas de la amígdala palatina. Por otro lado, y dada la avidez del tejido linfoide por la 18F-fluorodeoxiglucosa (FDG), puede ofrecer falsos positivos en el área orofaríngea [15, 18].

En nuestro estudio, a la totalidad de los pacientes se le realizó la batería de pruebas diagnósticas previamente descrita, endoscopia asistida por NBI, TC y PET; a excepción de un único paciente, al que se realizó RM por la presencia de una hipertrofia de amígdala lingual en la exploración física, que sin embargo reflejó negatividad en la biopsia quirúrgica realizada.

Otro punto crucial en el proceso diagnóstico del COD es el análisis histológico de VPH de las adenopatías cervicales, ya que la positividad de este orienta a una localización orofaríngea. No obstante, se han identificado tumores supraglóticos con positividad para VPH, aunque en esta localización la presencia del virus no suponga un factor pronóstico [11]. El estado de positividad de VPH se determina mediante el análisis inmunohistoquímico de p16, así como mediante PCR del ADN de VPH [15]. No

obstante, se debe mencionar que, aunque la positividad de p16 es un buen marcador de la presencia de VPH, una limitación de este es su presencia en tumores VPH negativos no orofaríngeos, como en adenopatías cervicales con infiltración de un carcinoma escamoso cutáneo [11, 19].

En caso de que no se identifique el tumor primario, ni con la exploración física ni con las pruebas de imagen, el siguiente escalón diagnóstico descrito en la mayoría de las series es la realización de amigdalectomía y exploración endoscópica bajo anestesia general [15]. Muchos estudios apoyan la realización de biopsias dirigidas, únicamente, de las zonas sospechosas o sugestivas de malignidad en la exploración física debido al escaso rendimiento de la realización de biopsias ciegas. No obstante, estas últimas siguen siendo ampliamente realizadas [20]. Debemos destacar que el rendimiento diagnóstico de la endoscopia bajo anestesia general es bajo, del 10 % aproximadamente según algunas series [21]; mientras que el rendimiento diagnóstico de la amigdalectomía es de aproximadamente el 50 % [15].

En este punto, se ha propuesto la TORS como siguiente escalón diagnóstico, ya que mejora la visualización de la orofaringe y facilita la amigdalectomía lingual. La cámara robótica y sus ópticas anguladas permiten una imagen de alta definición en 3D, con una visión magnificada de la orofaringe y de la superficie mucosa [11, 15]. Varios estudios han reportado la capacidad diagnóstica de la TORS en los tumores ocultos de orofaringe, sobre todo p16 positivos. Recientemente, van Weert et al. [10] han realizado un metaanálisis que compara la rentabilidad diagnóstica de la TORS frente a la endoscopia bajo anestesia general y toma de biopsias convencional, con una capacidad diagnóstica del 72 % frente al 41 %, respectivamente. Cabe destacar, que, en dicho metaanálisis, se han incluido estudios con independencia del estado de VPH de la metástasis ganglionar. Los pacientes VPH negativos, no obstante, se benefician menos del empleo de la TORS, con tasas diagnósticas de

aproximadamente el 13 % [12]. Esto último se evidenció de forma similar en nuestro estudio, en el que el uso del robot Da Vinci no demostró la presencia del tumor primario en ninguno de los pacientes VPH negativos incluidos.

En dos (50 %) de los cuatro pacientes que mostraron positividad para p16 en la adenopatía cervical, el análisis histopatológico de la amigdalectomía lingual fue positiva para malignidad. En uno de estos casos, se re-estadificó el proceso oncológico en estadio I, lo que permitió a su vez desescalar el tratamiento adyuvante. En este caso, el diagnóstico del tumor primario permitió la radiación localizada de la orofaringe y cadenas ganglionares cervicales afectas, con una dosis acumulada de 64 Gy que se complementó con tres ciclos de quimioterapia por la presencia de infiltración extracapsular (ENE+).

En este caso, queda reflejado el beneficio real del uso de la cirugía transoral robótica en el COD, y es la posibilidad de re-estadificar a los pacientes con la localización del tumor primario y así desescalar el tratamiento. Con frecuencia, los pacientes que son diagnosticados de un CEO VPH positivo tras la inicial sospecha de COD presentan un mejor pronóstico y tasas superiores de supervivencia. Esto supone un cambio crucial en el tratamiento radioterápico, limitando la radiación al área orofaríngea y reduciendo así secuelas a largo plazo como disfagia o xerostomía en un grupo de pacientes relativamente joven [10].

Por otro lado, la mayor parte de la literatura publicada hace referencia al uso de la TORS en la base de la lengua, ya que, aunque el robot mejora la visualización, una amigdalectomía simple también diagnosticaría un tumor primario de amígdala palatina. En consecuencia, hay varios estudios que proponen el uso de la TORS como segundo escalón en el proceso diagnóstico quirúrgico del COD, tras la endoscopia bajo anestesia general, biopsias y amigdalectomía simple convencionales [11, 14]. Esta propuesta está basada en una menor morbilidad quirúrgica para el paciente en caso de diagnóstico con el primer escalón. No obstante,

debemos destacar que las complicaciones severas, (definiendo estas como grado III-IV de Clavien-Dindo) tras TORS son poco frecuentes. Es por esto por lo que, la tendencia actual es a realizar un solo procedimiento asistido con robot [14]. En aproximadamente el 50 % de los pacientes incluidos en nuestro estudio se realizaron dos procedimientos quirúrgicos como parte del protocolo de búsqueda del tumor primario; en un primer tiempo se realizaron amigdalectomía bilateral, endoscopia bajo anestesia general y toma de biopsias de base de lengua y cavum. Ante el fracaso de diagnóstico del tumor primario, se realizó en un segundo tiempo una amigdalectomía lingual *vía* TORS. En el 50 % restante de los pacientes, se realizó un único procedimiento quirúrgico basado en una exploración bajo anestesia general con robot, amigdalectomía bilateral, amigdalectomía lingual y biopsia de cavum. Estas diferencias de aproximación diagnóstica se debieron a limitaciones en la disponibilidad del robot.

El tiempo medio de ingreso en nuestra muestra fue de 6 días (rango 2-19); este dato difiere de otras series, en las que la media de ingreso es de 1-2 días [22-24]. En nuestra serie el tiempo de ingreso se ve prolongado por la realización de un vaciamiento cervical ganglionar en el mismo procedimiento quirúrgico en ocho de los casos; siendo estos datos similares a lo ya reportado por Krishnan et al. [25] con una duración de ingreso media de 6 días.

La complicación más frecuente que presentaron los pacientes incluidos fue el mal control del dolor (grado I de Clavien-Dindo). Un caso presentó disfagia severa postquirúrgica que precisó de sonda nasogástrica de alimentación durante 14 días. Se debe mencionar, que en este caso la disfagia fue secundaria tanto a la amigdalectomía bilateral y amigdalectomía lingual, así como, al sacrificio de los pares craneales X y XII durante el vaciamiento radical cervical que se realizó. Cabe destacar, que en ninguno de los pacientes de nuestra serie fue necesaria la reintervención o el reingreso por complicaciones derivadas de la amigdalectomía

lingual TORS. Tampoco se reportaron hemorragias postquirúrgicas, siendo esta una de las complicaciones más frecuentes tras TORS [11]. A nivel respiratorio, 7 de los 9 pacientes fueron extubados en el postoperatorio inmediato, en un caso se mantuvo la intubación orotraqueal durante 4 horas y en otro durante 24 horas por la presencia patología pulmonar subyacente. En ningún caso fue necesaria la realización de traqueotomía.

Finalmente, debemos mencionar que los costes de la adquisición y el mantenimiento del robot pueden ser un factor limitante a la hora de su implementación en el proceso diagnóstico del COD. Byrd et al. [22] realizaron un análisis en 2014 del coste-efectividad del uso de la TORS en el COD; en dicho estudio se demostró que esta técnica es costo-efectiva en la localización y resección del tumor primario, no obstante, se enfatiza en el menor tiempo de estancia hospitalaria; con el consiguiente coste, que supone realizar un primer procedimiento basado en endoscopia bajo anestesia general y amigdalectomía palatina y realizar la amigdalectomía lingual *vía* TORS en un segundo tiempo en caso de fracaso diagnóstico.

Las limitaciones de nuestro estudio están relacionadas con el escaso tamaño muestral y en la inclusión de pacientes con metástasis cervicales p16 negativas en las que se ha reportado una menor rentabilidad diagnóstica del uso de la TORS. Por otro lado, debemos mencionar que la cirugía transoral robótica lleva menos de una década desarrollándose como herramienta diagnóstica y terapéutica en la cirugía de cabeza y cuello y muchos centros aún no cuentan con la misma. Es por esto por lo que sería de gran interés la realización de estudios multicéntricos a nivel nacional y determinar así la utilidad real del uso de la TORS en el COD.

## CONCLUSIONES

La amigdalectomía lingual asistida por robot supone una herramienta diagnóstica útil para la

localización del tumor primario en el COD en una era en la que se está evidenciando un aumento de la incidencia del CEO VPH positivo. Este procedimiento, por otro lado, tiene una baja tasa de complicaciones postquirúrgicas. El uso de la TORS para la localización del tumor primario puede ayudar a la desescalada del tratamiento, limitando el área a radiar y reduciendo así la dosis administrada en casos seleccionados.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Johnson DE, Burtneß B, Leemans CR, Lui VW, Bauman JE, Grandis JR. Head and neck squamous cell carcinoma. *Nat Rev Dis Primers*. 2020;6(1). <https://doi.org/10.1038/s41572-020-00224-3>
2. Pavlidis N, Briasoulis E, Hainsworth J, Greco FA. Diagnostic and therapeutic management of cancer of an unknown primary. *Eur J Cancer*. 2003;39(14):1990-2005. [https://doi.org/10.1016/s0959-8049\(03\)00547-1](https://doi.org/10.1016/s0959-8049(03)00547-1)
3. Lee MY, Fowler N, Adelstein D, Koymán S, Prendes B, Burkey BB. Detection and Oncologic Outcomes of Head and Neck Squamous Cell Carcinoma of Unknown Primary Origin. *Anticancer Res*. 2020;40(8):4207-4214. <https://doi.org/10.21873/anticancer.14421>
4. Rettig EM, D'Souza G. Epidemiology of head and neck cancer. *Surg Oncol Clin N Am*. 2015;24:379-96. <https://doi.org/10.1016/j.soc.2015.03.001>
5. Nauta IH, Rietbergen MM, van Bokhoven AAJD, Bloemena E, Lissenberg-Witte BI, Heideman DAM, et al. Evaluation of the eighth TNM classification on p16-positive oropharyngeal squamous cell carcinomas in the Netherlands and the importance of additional HPV DNA testing. *Ann Oncol*. 2018;29:1273-1279. <https://doi.org/10.1093/annonc/mdy060>
6. Chaturvedi AK, Engels EA, Pfeiffer RM, Hernandez BY, Xiao W, Kim E, et al. Human papillomavirus and rising oropharyngeal cancer incidence in the United States. *J Clin Oncol*. 2011;29:4294-301. <https://doi.org/10.1200/JCO.2011.36.4596>
7. Ryan JF, Motz KM, Rooper LM, Mydlarz WK, Quon H, Gourin CG, et al. The Impact of a Stepwise Approach to Primary Tumor Detection in Squamous Cell Carcinoma of the Neck With Unknown Primary. *Laryngoscope*. 2019;129:1610-616. <https://doi.org/10.1002/lary.27625>
8. Maghami E, Ismaila N, Alvarez A, Chernock R, Duvvuri U, Geiger J, et al. Diagnosis and Management of Squamous Cell Carcinoma of Unknown Primary in the Head and Neck: ASCO Guideline. *J Clin Oncol*. 2020;38(22):2570-2596. <https://doi.org/10.1200/JCO.20.00275>
9. Cosway B, Drinnan M, Paleri V. Narrow band imaging for the diagnosis of head and neck squamous cell carcinoma: A systematic review. *Head Neck*. 2016;38 Suppl 1:E2358-67. <https://doi.org/10.1002/hed.24300>
10. van Weert S, Rijken JA, Plantone F, Bloemena E, Vergeer MR, Lissenberg-Witte BI, Leemans CR. A systematic review on Transoral robotic surgery (TORS) for carcinoma of unknown primary origin: Has tongue base mucosectomy become indispensable? *Clin Otolaryngol*. 2020;45(5):732-38. <https://doi.org/10.1111/coa.13565>
11. Kalavacherla S, Sanghvi P, Lin GY, Guo T. Updates in the management of unknown primary of the head and neck. *Front Oncol*. 2022;12:991838. <https://doi.org/10.3389/fonc.2022.991838>
12. Kubik MW, Channir HI, Rubek N, Kim S, Ferris RL, von Buchwald C, et al. TORS Base-of-Tongue Mucosectomy in Human Papilloma Virus-Negative Carcinoma of Unknown Primary. *Laryngoscope*. 2021;131:78-81. <https://doi.org/10.1002/lary.28617>
13. Dindo D, Demartines N, Clavien PA. Classification of surgical complications: a new proposal with evaluation in a cohort of 6336 patients and results of a survey. *Ann Surg*. 2004;240:205-13. <https://doi.org/10.1097/01.sla.0000133083.54934.ae>
14. de Almeida JR, Li R, Magnuson JS, Smith RV, Moore E, Lawson G, et al. Oncologic Outcomes After Transoral Robotic Surgery: A Multi-institutional Study. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2015;141:1043-1051. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2015.1508>
15. Ye W, Arnaud EH, Langerman A, Mannion K, Topf MC. Diagnostic approaches to carcinoma

- of unknown primary of the head and neck. *Eur J Cancer Care (Engl)*. 2021;30:e13459. <https://doi.org/10.1111/ecc.13459>
16. Muraki AS, Mancuso AA, Harnsberger HR. Metastatic cervical adenopathy from tumors of unknown origin: the role of CT. *Radiology*. 1984;152:749-53. <https://doi.org/10.1148/radiology.152.3.6463256>
  17. Mendenhall WM, Mancuso AA, Parsons JT, Stringer SP, Cassisi NJ. Diagnostic evaluation of squamous cell carcinoma metastatic to cervical lymph nodes from an unknown head and neck primary site. *Head Neck*. 1998;20:739-44. [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1097-0347\(199812\)20:83.0.co;2-0](https://doi.org/10.1002/(sici)1097-0347(199812)20:83.0.co;2-0)
  18. Keller F, Psychogios G, Linke R, Lell M, Kuwert T, Iro H, et al. Carcinoma of unknown primary in the head and neck: comparison between positron emission tomography (PET) and PET/CT. *Head Neck*. 2011;33:1569-575. <https://doi.org/10.1002/hed.21635>
  19. Beadle BM, William WN Jr, McLemore MS, Sturgis EM, Williams MD. p16 expression in cutaneous squamous carcinomas with neck metastases: a potential pitfall in identifying unknown primaries of the head and neck. *Head Neck*. 2013;35:1527-533. <https://doi.org/10.1002/hed.23188>
  20. Tanzler ED, Amdur RJ, Morris CG, Werning JW, Mendenhall WM. Challenging the need for random directed biopsies of the nasopharynx, pyriform sinus, and contralateral tonsil in the workup of unknown primary squamous cell carcinoma of the head and neck. *Head Neck*. 2016;38:578-81. <https://doi.org/10.1002/hed.23931>
  21. Pattani KM, Goodier M, Lilien D, Kupferman T, Caldito G, Nathan CO. Utility of panendoscopy for the detection of unknown primary head and neck cancer in patients with a negative PET/CT scan. *Ear Nose Throat J*. 2011;90:E16-E20. <https://doi.org/10.1177/014556131109000818>
  22. Byrd JK, Smith KJ, de Almeida JR, Albertgotti WG, Davis KS, Kim SW, et al. Transoral Robotic Surgery and the Unknown Primary: A Cost-Effectiveness Analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2014;150:976-82. <https://doi.org/10.1177/0194599814525746>
  23. Khan N, Kass M, Miles B, Genden E. Transoral robotic assisted resection approach for identifying unknown primaries of the head and neck. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 2016; 94:P893. <https://doi.org/10.1016/j.ijrobp.2015.12.092>
  24. Blanco RG, Fakhry C, Ha PK, Ryniak K, Messing B, Califano JA, Saunders JR. Transoral robotic surgery experience in 44 cases. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2013;23:900-907. <https://doi.org/10.1089/lap.2013.0261>
  25. Krishnan S, Connell J, Ofo E. Transoral robotic surgery base of tongue mucosectomy for head and neck cancer of unknown primary. *ANZ J Surg*. 2017;87(12):E281-E284. <https://doi.org/10.1111/ans.13741>



## COMPLICACIONES EN CIRUGÍA TIROIDEA Y PARATIROIDEA. SERIE RETROSPECTIVA

### *Complications in thyroid and parathyroid surgery. Retrospective series*

Luis Miguel TORRES-MORIENTES <sup>1</sup>; Eduardo TAMAYO-GÓMEZ <sup>2</sup>; Paula PECIÑA-MELGOSA <sup>1</sup>;  
María Fe MUÑOZ-MORENO <sup>3</sup>; Ana FERNÁNDEZ-RODRÍGUEZ <sup>1</sup>; Jaime SANTOS-PÉREZ <sup>1</sup>

Hospital Clínico Universitario de Valladolid.

<sup>1</sup>Servicio de ORL y Cirugía de Cabeza y Cuello. Valladolid. España.

<sup>2</sup>BioCritic. Grupo de Investigación Biomédica en Cuidados Críticos, Valladolid. España. Departamento de Cirugía, Facultad de Medicina, Universidad de Valladolid, Valladolid, España. Servicio de Anestesiología y Cuidados Críticos. Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Valladolid. España. Centro de Investigación Biomédica en Red de Enfermedades Infecciosas (CIBERINFEC), Instituto de salud Carlos III, Madrid, España.

<sup>3</sup>Unidad de apoyo a la investigación. Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Valladolid. España.

Correspondencia: [luismitorres27@yahoo.es](mailto:luismitorres27@yahoo.es)

Fecha de recepción: 2 de noviembre de 2023

Fecha de aceptación: 31 de noviembre de 2023

Fecha de publicación: 11 de enero de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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: La tiroidectomía es uno de los procedimientos quirúrgicos más frecuentes realizados a nivel mundial. La incidencia de complicaciones es relativamente frecuente y en algunas ocasiones pueden ser extremadamente graves, aunque actualmente la tasa de mortalidad se acerca al 0%. Método: Se realiza una revisión de 400 tiroidectomías realizadas por un mismo cirujano incluyendo tiroidectomías totales, hemitiroidectomías y paratiroidectomías desde septiembre de 2011 hasta febrero 2020. Se tomó como variable principal las complicaciones quirúrgicas más relevantes (parálisis laringeas, hematomas sofocantes e hipoparatiroidismos transitorios y permanentes) y otras variables como duración de la cirugía, drenajes, estancia en REA, etc. Resultados: Del total de 400 pacientes intervenidos de tiroidectomía el 95% (380) no tuvieron alguna complicación quirúrgica importante (hemorragia asfíxica,

parálisis cordal e hipoparatiroidismo permanentes) y un 89% no tuvieron ninguna complicación. Hubo 5 casos (0,8%) de parálisis cordales unilaterales permanentes y 15 casos de hipoparatiroidismos permanentes (3,75% de todos los operados y 6,7% de las tiroidectomías totales). Discusión: Las complicaciones más frecuentes e importantes son el hipoparatiroidismo postquirúrgico, la lesión del nervio laríngeo recurrente (NLR) y el hematoma asfixiante. Conclusiones: La tiroidectomía es un procedimiento habitual y seguro con una disminución importante de la morbimortalidad en las últimas décadas. No obstante, las complicaciones pueden contribuir a un impacto negativo en la calidad de vida. Por lo tanto, es responsabilidad del cirujano ser consciente de los problemas intra y postoperatorios, y poner medidas en la prevención y tratamiento.

PALABRAS CLAVE: Tiroidectomía; hipoparatiroidismo; parálisis laríngea.

SUMMARY: Introduction and objective: Thyroidectomy is one of the most frequent surgical procedures realized worldwide. The incidence of complications is relatively frequent, and on some occasions can be extremely serious, even though currently the mortality rate is close to 0%. Method: A review of 400 thyroidectomies, performed by the same surgeon, including total thyroidectomies, hemithyroidectomies and parathyroidectomies from September 2011 to February 2020 has been performed. The most relevant surgical complications (laryngeal paralysis, suffocating hematomas and temporary and permanent hypoparathyroidism) were taken as the main variable, and other variables such as duration of surgery, surgical drainages, time spent in AER, etc. were also analyzed. Results: Of the total of 400 patients who underwent thyroidectomy, 95% (380) had no major surgical complications (asphyxiating hemorrhage, permanent chordal palsy and permanent hypoparathyroidism) and 89% had no complications. There were 5 cases (0,8%) of permanent unilateral chordal palsies and 15 cases of permanent hypoparathyroidism (3.75% of all operated patients and 6,7% of total thyroidectomies). Discussion: The most frequent and important complications are post-surgical hypoparathyroidism, recurrent laryngeal nerve (RLN) injury and suffocating hematoma. Conclusions: Thyroidectomy is a common and safe procedure with a significant decrease in morbidity and mortality in recent decades. However, complications can contribute to a negative impact on the patient's quality of life. Therefore, it is the surgeon's responsibility to be aware of intraoperative and postoperative problems, as well as to put measures in place for prevention and treatment.

KEYWORDS: Thyroidectomy, hypoparathyroidism, laryngeal paralysis.

## INTRODUCCIÓN

La tiroidectomía es un procedimiento frecuente y relativamente seguro, no obstante, hay riesgos de complicaciones importantes y severas como la hemorragia postquirúrgica, el hipoparatiroidismo y la lesión del nervio laríngeo recurrente (NLR). Estas son las principales complicaciones, luego hay una serie de complicaciones secundarias como son la lesión de la rama externa del nervio laríngeo superior, la infección de la herida quirúrgica, el seroma, la fatiga vocal, el síndrome de hongo hambriento etc. El hematoma asfixiante es una complicación potencialmente mortal que puede

causar distrés respiratorio o incluso la muerte en poco espacio de tiempo si no se trata urgentemente. Afortunadamente la incidencia del hematoma cervical se encuentra entre un 0,4%-6,5% [1,2]. El mecanismo fisiopatológico es la compresión traqueal del coágulo y un deterioro del retorno venoso o linfático que puede ocasionar el edema faringolaríngeo [3]. Por lo tanto, es crucial el reconocimiento precoz y el tratamiento inmediato para minimizar las complicaciones. El tratamiento, en la mayoría de las ocasiones requiere una reintervención inmediata que consiste en la evacuación del hematoma y el control de la hemorragia mediante la cauterización o ligadura de los posibles puntos

sangrantes. El sangrado arterial es el más común, teóricamente la arteria más frecuentemente afectada es la tiroidea superior [4], no obstante, suele ser bastante frecuente el sangrado en sábana sobre todo a nivel del lecho recurrential. Es excepcional el tratamiento conservador, únicamente en hematomas superficiales [5].

El hipoparatiroidismo postquirúrgico transitorio tiene una incidencia del 20 al 40% y el permanente entre el 0-3%. Los factores de riesgo que favorecen el desarrollo de hipocalcemia son el hipertiroidismo, la patología tiroidea maligna, las reintervenciones, el bocio subesternal y la disección cervical del compartimento central [6].

La lesión del NLR es una complicación relativamente frecuente. La incidencia de parálisis transitoria es del 5-8% y de parálisis permanente del 0,3-3%.

La incidencia global de complicaciones tras cirugía tiroidea es del 0- 54% incluyendo complicaciones menores y mayores [7].

La vigilancia, anticipación y compresión de todas las complicaciones intraoperatorias y postoperatorias es de obligado cumplimiento para todos los cirujanos de tiroides, así como el tratamiento inmediato [7]. Para prevenir o minimizar las complicaciones es preciso el conocimiento exhaustivo de la anatomía cervical y una técnica quirúrgica cuidadosa y meticulosa. Hay factores que no dependen del cirujano como son la pluripatología, los tratamientos concomitantes, así como la patología intrínseca tiroidea [8].

El objetivo del estudio es analizar y revisar todas las complicaciones tiroideas y ver si hay factores de riesgo determinantes en su desarrollo.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se llevó a cabo un estudio clínico retrospectivo en el Servicio de ORL y Cirugía de Cabeza y Cuello del Hospital Clínico Universitario de Valladolid, en el periodo comprendido entre septiembre de 2011 y diciembre de 2020 (9 años y 3 meses). Se obtuvo

autorización por el Comité Ético de Investigación de medicamentos (CEIm), con código 21-2296 para el diseño del estudio.

Un total de 400 pacientes fueron intervenidos de tiroidectomías por un mismo cirujano (374 tiroidectomías y 26 paratiroidectomías aisladas). La edad media fue de 56 años con un rango entre 19 y 83 años. La prevalencia por sexo era mayoritariamente femenina, un 81,8% eran mujeres (327 pacientes) y el 18,3% restantes varones (73 pacientes). Un 43% no tenía antecedentes de interés siendo la HTA el principal antecedente personal, estando presente en 124 pacientes. En un 32% había antecedentes familiares de tiroides y solamente el 9,5% tenía factores de riesgos de cáncer de tiroides (déficit de sal iodada, antecedentes familiares e irradiación previa). En todos los pacientes se realizaron videolaringscopias de las cuerdas vocales pre y postquirúrgicas, cirugía con anestesia general por un equipo quirúrgico experimentado y la misma técnica quirúrgica.

Los pasos cruciales de la cirugía fueron la ligadura de la vena tiroidea media si la había, la ligadura de los pedículos tiroideos superiores con la preservación anatómica de la rama externa del nervio laríngeo superior (solamente identificado en el 5,2% de los casos), la identificación y disección del NLR hasta la entrada en laringe con y sin neuromonitorización y la ligadura del pedículo tiroideo inferior. La hemostasia realizada fue sellado vascular con sistema bipolar, pinza bipolar con o sin ligadura tradicional. En todos los casos utilizamos material hemostático reabsorbible de celulosa en los lechos recurrentiales. Se utilizó el sistema de neuromonitorización intraoperatoria (NMIO) intermitente con electrodos de registro adosados al tubo endotraqueal y un electrodo de estimulación (NIM 3.0, Medtronic). Durante los primeros 3 años (2011-2014) la neuromonitorización se realizaba en casos seleccionados (grandes bocios cervicales, extensión retroesternal, cirugía oncológica ganglionar asociada, cirugía de revisión y parálisis laríngea contralateral). A partir del 2014

la NMIO se realizó de forma sistemática en todos los pacientes. Se recogieron todas las complicaciones postquirúrgicas y se analizaron las variables más importantes. En primer lugar, el hipoparatiroidismo postquirúrgico temporal y definitivo con los niveles de calcemia al alta. Otras variables principales analizadas fueron las parálisis cordales temporales y definitivas y el sangrado postquirúrgico. Otras complicaciones menores estudiadas fueron la infección, el seroma, el síndrome de hueso hambriento, fatiga vocal etc. Se recogieron otros datos importantes como la duración de la cirugía, necesidad de servicio de Reanimación (REA) tras cirugías totales y la duración de los drenajes.

## RESULTADOS

En los 400 pacientes estudiados se disecaron 625 nervios de los cuales 325 eran derechos y 300 izquierdos. Se identificaron 620 NLR (99,6%) de todos los nervios estudiados, de los cuales 6 nervios derechos eran nervios laríngeos inferiores no recurrentes (0,9% del total de NLR). Los 5 NLR que no se identificaron se debían a istmectomías aisladas y paratiroidectomías selectivas.

En la Tabla 1 se recoge la indicación quirúrgica siendo el bocio multinodular bilateral eutiroideo la indicación quirúrgica principal con una frecuencia de 109 pacientes, seguido del nódulo tiroideo único, bocio multinodular unilateral y cáncer papilar de tiroides, todos ellos con un porcentaje del 12%. En la Tabla 2 se muestra el tipo de cirugía realizada, se llevó a cabo una tiroidectomía total en 223 pacientes, hemitiroidectomía con o sin istmectomía en 149, istmectomías aisladas en 2 y paratiroidectomías aisladas en 26 pacientes. Se asociaron vaciamientos terapéuticos laterales en 23 pacientes y vaciamientos selectivos centrales en 10 casos. Las pruebas radiológicas prequirúrgicas fueron ecografía en un 62%, ecografía y tomografía computarizada (TC) en un 17%, ecografía y gammagrafía en un 12% y TC aislada en un 5,8% de los casos.

Tabla 1. Indicación quirúrgica según patología tiroidea.

	Pacientes n=400		Pacientes n=400
	Frecuencia	Porcentaje	
Nódulo tiroideo	51	12,8%	51 (12,8)
BMN unilateral	51	12,8%	51 (12,8)
BMN bilateral eutiroideo	109	27,3%	109 (27,3)
BMN tóxico	23	5,8%	23 (5,8)
Graves-Basedow	18	4,5%	18 (4,5)
Sospecha de cáncer tiroideo	23	5,8%	23 (5,8)
Carcinoma papilar	48	12%	48 (12)
Carcinoma + metástasis ganglionares	21	5,3%	21 (5,3)
HPT 1º	27	6,8%	27 (6,8)
HPT 2º	3	0,8%	3 (0,8)
Carcinoma medular	2	0,5%	2 (0,5)
BMN + HPT	24	6%	24 (6)

(BMN: bocio multinodular, HPT 1º: hiperparatiroidismo primario, HPT 2º: hiperparatiroidismo secundario, HPT: hiperparatiroidismo).

Tabla 2. Tipo de cirugía realizada.

	Pacientes n=400	
	Frecuencia	Porcentaje
Hemitiroidectomía	133	33,25%
Tiroidectomía total (TT)	175	43,75%
Istmectomía	2	0,5%
TT + Vaciamiento central	10	2,5%
TT+ VCFG lateral	18	4,5%
VCFG	5	1,25%
Paratiroidectomía aislada	19	4,75%
Paratiroidectomía bilateral	2	0,5%
Paratiroidectomía subtotal	2	0,5%
Paratiroidectomía doble unilateral	3	0,75%
TT + Paratiroidectomía	15	3,75%
Hemitiroidectomía + Paratiroidectomía	16	4%

(TT: tiroidectomía total, VCFG: vaciamiento cervical funcional ganglionar)

La técnica quirúrgica estándar fue de disección extracapsular, en el 62 % de los casos no se seccionaron los músculos pretiroideos, en un 27% la sección fue unilateral y en un 10% se seccionaron ambos lados. El sistema de hemostasia predominante fue sellado y bipolar (en 348 casos), asociando ligadura en 52 pacientes.

El 58% de todos pacientes tuvo una duración quirúrgica entre una y dos horas, un 32% entre 2-3 horas, un 6% más de tres horas y un 3,5% menos de una hora. Del total de 223 tiroidectomías totales el 57% fue a REA y el 43% no, la tendencia en los últimos años era no llevarlos a Reanimación. En cuanto a la duración del drenaje (concertina) el 30% se retiraba entre el primer y segundo día, el 48% al tercer día y un 20% al cuarto día.

En 350 pacientes (88%) no hubo ninguna complicación (se excluye el hipoparatiroidismo temporal cercano al 25% en las tiroidectomías totales).

En primer lugar, enumeramos las complicaciones más importantes tras tiroidectomías. El hipoparatiroidismo fue la complicación más frecuente. Si tenemos en cuenta toda la serie (400 pacientes) la incidencia de hipoparatiroidismo temporal fue del 14% y el permanente del 3,75%. Teniendo en cuenta las tiroidectomías totales (223) la incidencia sube a un 25% el hipoparatiroidismo temporal y un 6,7% el permanente (Tabla 3). Los niveles de calcemia al alta tras tiroidectomías totales fueron entre 7,5-8 mg / dL en un 7,6%, entre 8 y 8,5 mg /dL en un 23%, entre 8,5-9 mg /dL en un 37% y más de 9 mg/ dL en un 31%.

Tabla 3. Hipoparatiroidismo.

	Frecuencia	Porcentaje (total: 400)	Porcentaje (T.T:223)
Hipoparatiroidismo temporal	56	14%	25%
Hipoparatiroidismo definitivo	15	3,75%	6,7%

(TT: tiroidectomía total)

La segunda variable evaluada fue la parálisis laríngea temporal y permanente. No hubo ninguna parálisis laríngea bilateral. En los 400 pacientes se registraron 8 parálisis laríngeas temporales unilaterales (2%) con una recuperación completa en menos de 6 meses y 5 parálisis laríngeas definitivas (1,2%). Si analizamos los 625 nervios observamos un 1,2% y un 0,8% de parálisis temporales y permanentes respectivamente. De las 8 parálisis temporales 6 fueron con NMIO (1,29%) y 2 sin NMIO (1,22%) y de las 5 parálisis definitivas 4 (1%) fueron con NMIO y 1 (0,2%) sin NMIO (Tabla 4). En las 374 tiroidectomías observamos 7 parálisis temporales (1,8%) y 4 definitivas (1%).

Solamente 1 paciente (0,25%) presentó una hemorragia postquirúrgica que se resolvió sin incidencias.

Las complicaciones más reseñables en cirugía paratiroidea aislada (26 casos) fueron 1 parálisis cordal unilateral temporal (3,8%) y 1 definitiva (3,8%) y 2 casos de síndrome de hueso hambriento (7,6%).

Otras complicaciones fueron la infección postquirúrgica en 10 pacientes (2,5%), seroma en 5 (1,2%) y otras complicaciones más excepcionales como el hombro doloroso en 5 pacientes tras 23 cirugías de vaciamiento cervical asociado (21%).

## DISCUSIÓN

El objetivo de este estudio es analizar y comparar las complicaciones postoperatorias tras una revisión de tiroidectomías realizadas por un mismo cirujano. En los últimos años ha habido cambios en la cirugía tiroidea que han provocado un descenso

Tabla 4. Parálisis laríngeas unilaterales postquirúrgicas.

	Pacientes n= 13			
	Temporales (8)		Definitivas (5)	
NMIO	6	1,29%	4	1%
Sin NMIO	2	1,22%	1	0,2%

(NMIO: Neuromonitorización intraoperatoria)

en las complicaciones, no obstante, aunque son poco frecuentes todavía son temidas y algunas potencialmente mortales. El hipoparatiroidismo con la consecuente hipocalcemia es la complicación más frecuente. La hipocalcemia transitoria se encuentra en torno al 1-40% y la incidencia de la definitiva se sitúa sobre el 3%. Si tenemos en cuenta toda la serie (400) el índice de hipoparatiroidismo permanente es similar a la mayoría de las publicaciones (3,75%) mientras que, si solo consideramos cirugías totales el hipoparatiroidismo definitivo aumenta al 6,7%, discretamente elevado por encima de la media. La incidencia del hipoparatiroidismo temporal es del 14% si consideramos todas las cirugías y del 25% en tiroidectomías totales, acorde a la bibliografía. Independiente de los factores de riesgo que incrementan el hipoparatiroidismo es imprescindible la correcta identificación y protección de dichas glándulas durante la cirugía [7]. La preservación de la vascularización arterial y venosa es crucial mediante la disección capsular. La coloración paratiroidea al final de la cirugía es clave, si el color es marrón oscuro indica estasis venosa y si esta pálida isquemia arterial [9]. La preservación y el autotrasplante de paratiroides se reserva para casos de exéresis paratiroides inadvertidas, aunque para algunos autores no reduce el hipoparatiroidismo permanente [10, 11]. En los últimos años se han utilizado técnicas como la autofluorescencia e inmunofluorescencia con el objetivo de disminuir esta complicación [12, 13]. Por otro lado, muchos factores intervienen en la parálisis del NLR, tales como la tracción o estiramiento, contusión, pinzamiento, calentamiento, ligadura, sutura o corte [14]. La región anatómica donde se lesiona con más facilidad es a nivel del ligamento de Berry, unos dos centímetros antes de entrar en la laringe [15]. Los principales puntos de referencia en la identificación del NLR son su cruce con la arteria tiroidea inferior (ATI) y el tubérculo de Zuckerkandl. Hay que tener en cuenta otros detalles como las ramificaciones (la anterior o interna es la principal), el trayecto diferente en

cada lado (oblicuo derecho y vertical izquierdo), la variabilidad provocada por patologías tiroideas (grandes bocios subesternales o patología tumoral) o la presencia de nervio laríngeo inferior derecho no recurrente [16]. Clásicamente se consideraba el tamaño del bocio factor de riesgo de complicaciones, aunque hay artículos que no muestran asociación [17]. La incidencia de parálisis transitoria del NLR es del 5-8% y la permanente del 0,3 -3% [18]. En nuestra serie la incidencia de parálisis temporal unilateral fue del 1,2% y la definitiva del 0,8%, ambas por debajo de la mayoría de las revisiones. Sin embargo, observamos en paratiroidectomías aisladas la incidencia de parálisis temporal y definitiva fue significativamente superior (3,8% en ambos casos), se puede atribuir a la variabilidad del trayecto del nervio provocado por el adenoma de paratiroides. La utilización de la NMIO realmente no disminuyó la incidencia de parálisis unilaterales, pero por seguridad, docencia, utilidad medicolegal y aprendizaje la realizamos de forma sistemática a partir del 2014. Las tasas de hemorragia postoperatoria en la literatura varían del 0-9,1% [19]. En nuestro caso solo 1 de 400 pacientes presentó hemorragia que cedió con revisión quirúrgica. Esta baja incidencia de sangrado en nuestra serie podría ser debida al uso sistemático de sistemas de sellado vascular y a la no sección en la mayoría de los casos de los músculos pretiroideos. Hay estudios que sugieren la aplicación de parches hemostáticos que redujeron el sangrado, pero sin resultados estadísticamente significativos [19]. Otras complicaciones descritas con bastante frecuencia son la lesión de la rama externa del nervio laríngeo superior, seromas, infecciones o complicaciones más raras como rupturas traqueales, paratirotoxicosis, síndrome de hueso hambriento, hombro doloroso, perforaciones esofágicas u otras lesiones nerviosas.

## CONCLUSIONES

Las complicaciones más temidas tras cirugía de tiroides son el hipoparatiroidismo permanente,

la lesión del NLR y el sangrado postoperatorio. La tiroidectomía es un procedimiento frecuente y seguro con una disminución importante de la morbimortalidad en las últimas décadas. No obstante, las complicaciones pueden contribuir a un impacto negativo en la calidad de vida. Por lo tanto, es responsabilidad del cirujano ser consciente de los problemas intra y postoperatorios, así como poner medidas en la prevención y tratamiento.

#### AGRADECIMIENTOS

Agradecimiento al Servicio de ORL y Cirugía de Cabeza y Cuello y Unidad de apoyo a la investigación del Hospital Clínico Universitario de Valladolid por permitir elaborar este trabajo de revisión.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Fan C, Zhou X, Su G, Zhou Y, Su J, Luo M et al. Risk factors for neck hematoma requiring surgical re-intervention after thyroidectomy: a systematic review and meta-analysis. *BMC Surg.* 2019; 19 (1):98. Doi: <https://doi.org/10.1186/s12893-019-0559-8>.
2. Galluzzi F, Garavello W. Complications of revision surgery in case of bleeding after thyroid surgery: A systematic review. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2023; 140 (4): 171-6. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2023.01.002>.
3. Harding J, Sebag F, Sierra M, Palazzo FF, Henry J-F. Thyroid surgery: postoperative hematoma prevention and treatment. *Langenbecks Arch Surg.* 2006; 391 (3): 169-73. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00423-006-0028-6>.
4. Sun N, Zhang D, Zheng S, Fu L, Li L, Liu S et al. Incidence and risk factors of post-operative bleeding in patients undergoing total thyroidectomy. *Front Oncol.* 2020; 10:1075. Doi: <https://doi.org/10.3389/fonc.2020.01075>.
5. Pontin A, Pino A, Caruso E, Pinto G, Melita G, Maria DP et al. Postoperative bleeding after thyroid surgery: care instructions. *Sisli Etfal Hastan Tip Bul.* 2019; 53 (4): 329-36. Doi: <https://doi.org/10.14744/SEMB.2019.95914>.
6. Lale A, Öz B, Akcan AC, Sözüer EM, Arıkan TB, Gök M. Determination of risk factor causing hypocalcaemia after thyroid surgery. *Asian J Surg.* 2019; 42(9):883-9. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.asjsur.2018.12.009>.
7. Jin S, Sugitani I. Narrative review of management of thyroid surgery complications. *Gland Surg.* 2021;10(3):1135-1146. Doi: <https://doi.org/10.21037/gs-20-859>.
8. Gómez-Ramírez J, Heras PC, Jiménez RA, Sáez LDJ, Pineda EY, Syro CZ et al. Large goiters and postoperative complications: ¿does it really matter? *Langenbeck's Archives of Surgery.* 2023; 408 (1): 213. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00423-023-02959-5>.
9. Lorente-Poch L, Sancho JJ, Ruiz S, Sitges-Serra A. Importance of in situ preservation of parathyroid glands during total thyroidectomy. *Br J Surg.* 2015; 102(4): 359-67. Doi: <https://doi.org/10.1002/bjs.9676>.
10. Sitges-Serra A, Lorente-Poch L, Sancho J. Parathyroid autotransplantation in thyroid surgery. *Langenbecks Arch Surg.* 2018; 403(3):309-15. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00423-018-1654-5>.
11. Tartaglia F, Blasi S, Giuliani A, Merola R, Livadoti G, Krizzuk D et al. Parathyroid autotransplantation during total thyroidectomy. Results of a retrospective study. *Int J Surg.* 2016;28 Suppl 1: 79-83. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijssu.2015.05.059>.
12. Ladurner R, Lerchenberger M, Al Arabi N, Gallwas J, Stepp H, Hallfeldt K. Parathyroid Auto-fluorescence-How Does It Affect Parathyroid and Thyroid Surgery? A 5 Year Experience. *Molecules.* 2019; 24 (14):2560. Doi: <https://doi.org/10.3390/molecules24142560>.
13. Abbaci M, De Leeuw F, Breuskin I, Casiraghi O, Lakhdar AB, Ghanem W et al. Parathyroid gland management using optical technologies during thyroidectomy or parathyroidectomy: A systematic review. *Oral Oncol.* 2018; 87:186-96. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.oraloncol.2018.11.011>.

14. Gambardella C, Polistena A, Sanguinetti A, Patrone R, Napolitano S, Esposito D et al. Unintentional recurrent laryngeal nerve injuries following thyroidectomy: ¿Is it the surgeon who pays the bill. *Int J Surg.* 2017; 41 Suppl 1: 55-9. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.ijssu.2017.01.112>.
15. Kaisha W, Wobenjo A, Saidi H. Topography of the recurrent laryngeal nerve in relation to the thyroid artery, Zuckerkandl tubercle, and Berry ligament in Kenyans. *Clin Anat.* 2011; 24 (7):853-7. Doi: <https://doi.org/10.1002/ca.21192>.
16. Bakaliniš E, Makris I, Demesticha T, Tsakotos G, Skandalakis P, Filippou D. Non-Recurrent Laryngeal Nerve and Concurrent Vascular Variants: A Review. *Acta Med Acad.* 2018; 47 (2):186-92. Doi: <https://doi.org/10.5644/ama2006-124.230>.
17. Gómez-Ramírez J, Heras PC, Jiménez RA, Saez LDJ, Pineda EY, Syro CZ et al. Large goiters and postoperative complications: ¿does it really matter?. *Langenbeck's Arch Surg.* 2023; 408 (1):213. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00423-023-02959-5>.
18. Hayward NJ, Grodski S, Yeung M, Johnson WR, Serpell J. Recurrent laryngeal nerve injury in thyroid surgery: a review. *ANZ J Surg.* 2013; 83 (1-2):15-21. Doi: <https://doi.org/10.1111/j.1445-2197.2012.06247.x>.
19. Polychronidis, G. Hüttner FJ, Contin P, Goossen K, Uhlmann L, Heidmann M et al. Network meta-analysis of topical haemostatic agents in thyroid surgery. *Br J Surg.* 2018; 105 (12): 1573-1582. Doi: <https://doi.org/10.1002/bjs.10975>.

## UTILIZACIÓN DE LA PLANIFICACIÓN CON MODELOS DE ANATOMÍA VIRTUAL 3D Y PIEZAS ANATÓMICAS A TAMAÑO REAL PARA LA CIRUGÍA DE LESIONES ÓSEAS EN LA ZONA DEL NASOSINUSAL

### *Planning with 3D virtual anatomy models and life-size anatomical pieces for the surgery of bone lesions in the naso-sinus area*

Alda CARDESÍN-REVILLA <sup>1</sup>; Mariana CAMPOS-MOTAMAYOR <sup>1</sup>; Aina SANSA-PERNA <sup>1</sup>;  
Silvia LÓPEZ-GALERA <sup>2</sup>; Yolanda ESCAMILLA-CARPINTERO <sup>1</sup>; Esther GRANELL-MORENO <sup>3</sup>;  
Carlota ROVIRA-MARTÍNEZ <sup>1</sup>; Rosa ROSELL-FERRER <sup>1</sup>

<sup>1</sup>Hospital de Sabadell, Instituto Universitario Parc Taulí, Universidad Autónoma de Barcelona. Unidad de Rinología, Departamento de Otorrinolaringología.

<sup>2</sup>Hospital de Sabadell, Instituto Universitario Parc Taulí, Universidad Autónoma de Barcelona. Departamento de Anestesia.

<sup>3</sup>Hospital de Sabadell, Instituto Universitario Parc Taulí, Universidad Autónoma de Barcelona. Departamento de Radiología Barcelona. España.

Correspondencia: [crovira.orl@gmail.com](mailto:crovira.orl@gmail.com)

Fecha de recepción: 10 de octubre de 2023

Fecha de aceptación: 7 de mayo de 2024

Fecha de publicación: 8 de mayo de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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: Mostrar nuestra experiencia en la planificación con modelos de anatomía virtual 3D y piezas anatómicas a tamaño real para la cirugía de lesiones óseas en la zona nasosinusal. Método: Presentamos un estudio observacional de tumores óseos nasosinuales diagnosticados entre 2019 y 2021 que fueron intervenidos en el servicio de Otorrinolaringología. El estudio de imagen se completó con reconstrucciones en 3D y modelos anatómicos virtuales, así como piezas a tamaño real en dos de ellos para planificar la cirugía endoscópica multidisciplinar. Resultados: Se operaron tres casos

de pacientes de 15, 20 y 73 años. El tipo de cirugía para estos tumores está determinado por su tamaño y ubicación. La planificación quirúrgica mediante modelos anatómicos en 3D permite ajustar con la mayor precisión las zonas a intervenir, reduciendo el tiempo quirúrgico y las complicaciones. El grado de satisfacción de todos los cirujanos medido por la escala de Likert fue muy positivo (puntuación media de 5), mientras que la puntuación media de los ayudantes fue de 4,55. El tamaño de la pieza quirúrgica se adaptó perfectamente al modelo 3D, de modo que la pieza quirúrgica y la reconstrucción de la pieza de mano tenían el mismo tamaño. No se observaron efectos adversos con el uso de la técnica 3D en nuestras cirugías. No tuvimos complicaciones intraoperatorias ni postoperatorias y se redujo el tiempo quirúrgico. Discusión: Los modelos anatómicos impresos en 3D son útiles para la planificación quirúrgica, reduciendo el tiempo quirúrgico y mejorando los resultados médicos, aunque plantean preocupaciones sobre la rentabilidad. Se necesita más investigación para determinar si los beneficios justifican los costos adicionales, especialmente en casos complejos o con cirujanos menos experimentados. Estos modelos también tienen un potencial educativo importante para estudiantes de medicina y residentes, mejorando la comunicación médico-paciente y la satisfacción del paciente. Conclusiones: La tecnología innovadora en 3D con modelos anatómicos, guías quirúrgicas y la posibilidad de implantes personalizados son nuevas herramientas disponibles en el quirófano.

**PALABRAS CLAVE:** Impresión 3D; reconstrucción de imágenes en 3D; innovación; cirugía; modelo anatómico.

**SUMMARY:** Introduction and objective: To showcase our experience in planning with 3D virtual anatomy models and life-sized anatomical pieces for surgery on bone lesions in the nasosinusal area. Method: We present an observational study of nasosinusal bone tumors diagnosed between 2019 and 2021 that were operated on in the Otorhinolaryngology department. The imaging study was complemented with 3D reconstructions and virtual anatomical models, as well as life-sized anatomical pieces in two of them for planning multidisciplinary endoscopic surgery. Results: Three cases of patients aged 15, 20, and 73 years were operated on. The type of surgery for these tumors is determined by their size and location. Surgical planning using 3D anatomical models allows for the most precise adjustment of the areas to be operated on, reducing surgical time and complications. The satisfaction level of all surgeons, measured by the Likert scale, was very positive (average score of 5), while the average score of the assistants was 4.55. The size of the surgical piece perfectly matched the 3D model, so the surgical piece and the handpiece reconstruction were the same size. No adverse effects were observed with the use of the 3D technique in our surgeries. We had no intraoperative or postoperative complications and surgical time was reduced. Discussion: 3D printed anatomical models are useful for surgical planning, reducing surgical time and improving medical outcomes, although they raise concerns about cost-effectiveness. More research is needed to determine whether the benefits justify the additional costs, especially in complex cases or with less experienced surgeons. These models also have significant educational potential for medical students and residents, improving patient-physician communication and patient satisfaction. Conclusions: Innovative 3D technology with anatomical models, surgical guides, and the possibility of custom implants are new tools available in the operating room.

**KEYWORDS:** 3D printing; 3D image reconstruction; innovation; surgery; anatomical model.

## INTRODUCCIÓN

La impresión tridimensional (3D) tiene numerosas aplicaciones y ha ganado mucho interés en el mundo médico. En la última década, el uso de la impresión 3D para guías quirúrgicas, modelos anatómicos e implantes personalizados se ha descrito cada vez más en muchas especialidades como la otorrinolaringología, siendo una herramienta más utilizada en otras especialidades como la cirugía maxilofacial, traumatología o cirugía vascular [1,2].

Al integrar la impresión 3D en la ingeniería de materiales y tejidos, es posible implantar injertos funcionales impresos en 3D en pacientes para la reconstrucción de una variedad de defectos [3].

En casos de invasión intracraneal y orbitaria, las cirugías otorrinolaringológicas por tumores diagnosticados mediante pruebas clínicas y de imagen como la tomografía computarizada (TC) y la resonancia magnética (RMN) pueden beneficiarse de una planificación con ayuda de tecnología 3D además de navegadores, para facilitar abordajes y límites de la escisión.

Queremos presentar nuestra experiencia utilizando modelos anatómicos 3D a tamaño real y guías quirúrgicas para planificar cirugías en tumores óseos nasosinuales, permitiéndonos ajustar las zonas a intervenir con la máxima precisión reduciendo así el tiempo quirúrgico y las complicaciones.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se recogieron los casos de tumores óseos nasosinuales diagnosticados entre 2019 y 2021. En este tipo de tumores siempre se realizan pruebas de imagen para el diagnóstico. En estos casos, el estudio se completó mediante reconstrucciones en 3D, y en dos casos también se realizaron piezas de mano a tamaño real.

Se utilizó una escala de Likert (muy negativo: 1; negativo: 2; neutral: 3; positivo: 4; muy positivo: 5) para evaluar el grado de satisfacción del

cirujano y los asistentes con el uso de reconstrucciones 3D. La prueba de Likert fue respondida por el cirujano principal y 3 asistentes de cada cirugía.

También se comprobó la fiabilidad de la pieza de mano comparando el tamaño del tumor después de la extirpación y la pieza de mano realizada en 3D.

Se registraron los efectos adversos debidos a la nueva técnica.

## RESULTADOS

Se incluyeron tres casos de pacientes operados de 15, 20 y 73 años.

Paciente varón de 20 años con lesión fibroósea exofítica en hueso nasal derecho con afectación del margen anterior del proceso frontal del maxilar de 10x9mm, compatible por anatomía patológica con displasia fibrosa, y que presenta irregularidad en su superficie lateral sin crecimiento endonasal. Se realizó un modelo anatómico virtual en 3D, y se extrajo mediante un abordaje de rinoplastia abierta (Figura 1).

Un paciente varón de 15 años acudió a nuestra consulta con epistaxis unilateral. A la exploración se objetivó una lesión polipoide en fosa nasal derecha de la que se tomó biopsia con resultado de tejido inflamatorio y se solicitó estudio de imagen. La TC y la RMN mostraron una lesión calcificada/ósea expansiva de un diámetro máximo de 38 mm en el etmoides derecho, junto con una sinusopatía obstructiva frontal del mismo lado, que por anatomía patológica fue un osteoma. En este caso, se realizó un modelo anatómico virtual en 3D con una pieza de mano impresa en 3D a tamaño real para el día de la cirugía, que se realizó mediante endoscopia nasosinusal (Figura 2).

Finalmente, un paciente varón de 73 años con cefalea y visión borrosa fue diagnosticado por TC y RMN de un osteoma etmoidal gigante con extensión intracraneal frontal basal, intraorbitario, seno frontal y nasal posterior derecho y etmoidal posterior izquierdo con importante distorsión de las estructuras óculo-neuro-musculares de la cavidad

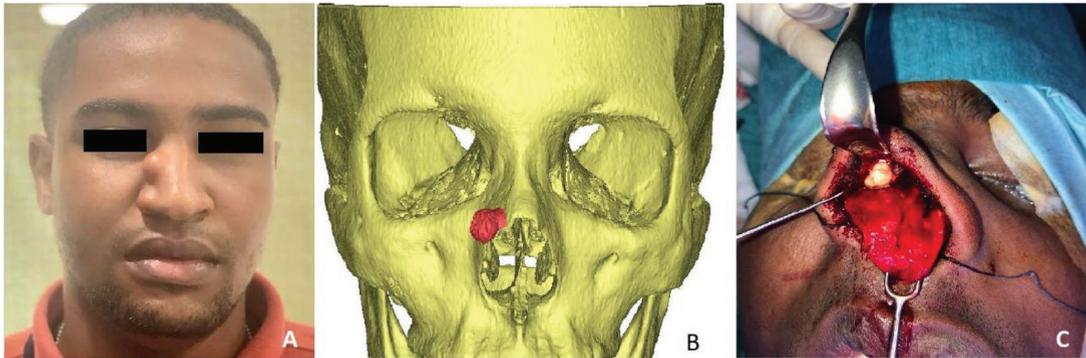


Figura 1. A: Lesión fibro-ósea exofítica en el hueso nasal derecho. B: Imagen virtual en 3D. C: Abordaje de rinoplastia abierta.

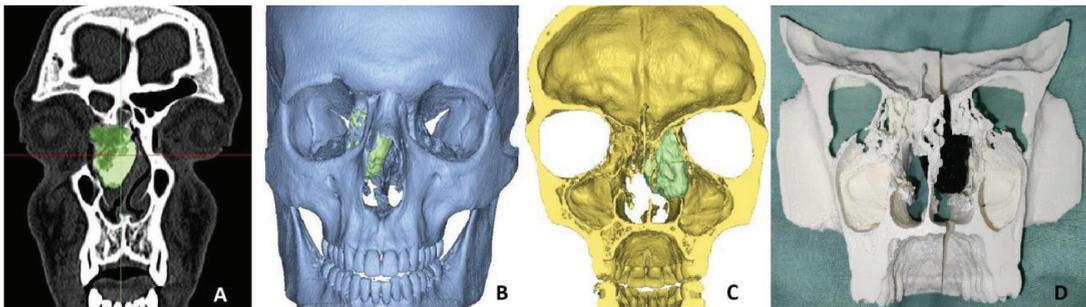


Figura 2. A: La tomografía computarizada mostró una lesión calcificada/ósea expansiva. B: Modelo anatómico virtual 3D anterior. C: Modelo anatómico virtual 3D posterior. D: Pieza de mano impresa en 3D de tamaño real.

orbitaria derecha. La anatomía patológica de la pieza confirmó el diagnóstico. En este caso también se utilizó un modelo anatómico virtual en 3D y una muestra impresa a tamaño real. Se realizó cirugía combinada mediante endoscopia nasal e incisión abierta bicoronal con craneotomía bifrontal con resección de la barra orbitaria derecha, media y cranealización del seno frontal izquierdo. La cirugía fue realizada por otorrinolaringólogos, neurocirujanos y cirujanos maxilofaciales. En este caso se realizó la reconstrucción de la órbita con malla de titanio estándar (no a medida) y colgajo de calota craneal para la cavidad nasal más reposicionamiento de la barra orbitaria fijada con miniplacas de titanio (Figura 3).

El grado de satisfacción de todos los cirujanos medido por el test de Likert fue muy positivo

(puntuación media de 5), mientras que la puntuación media de los auxiliares fue de 4,55. El tamaño de la pieza quirúrgica se adaptó perfectamente al modelo 3D, de modo que la pieza quirúrgica y la reconstrucción de la pieza de mano eran del mismo tamaño y, por lo tanto, fiables (Figura 4). No se observaron efectos adversos con el uso de la técnica 3D en estas cirugías. No tuvimos complicaciones intraoperatorias ni postoperatorias y se redujo el tiempo quirúrgico.

## DISCUSIÓN

El diagnóstico de las lesiones óseas se establece mediante una combinación de historia clínica, examen físico, endoscopia y estudios de imagen [4]. La TC es la prueba diagnóstica estándar, ya

UTILIZACIÓN DE LA PLANIFICACIÓN CON MODELOS DE ANATOMÍA VIRTUAL 3D Y PIEZAS ANATÓMICAS  
A TAMAÑO REAL PARA LA CIRUGÍA DE LESIONES ÓSEAS EN LA ZONA DEL NASOSINUSAL  
CARDESÍN-REVILLA A, CAMPOS-MOTAMAYOR M, SANSÁ-PERNA A ET AL.

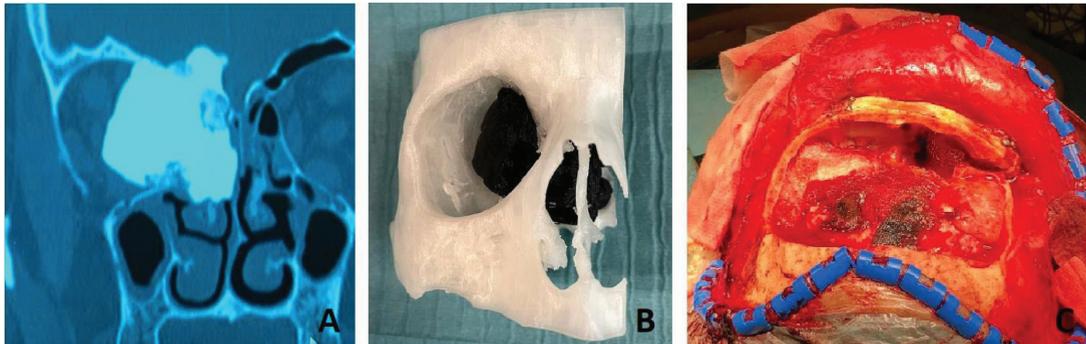


Figura 3. A: TC de un osteoma etmoidal gigante con extensión intracraneal frontal basal. B: Pieza de mano impresa en 3D de tamaño real. C: Incisión abierta bicoronar con craneotomía bifrontal.

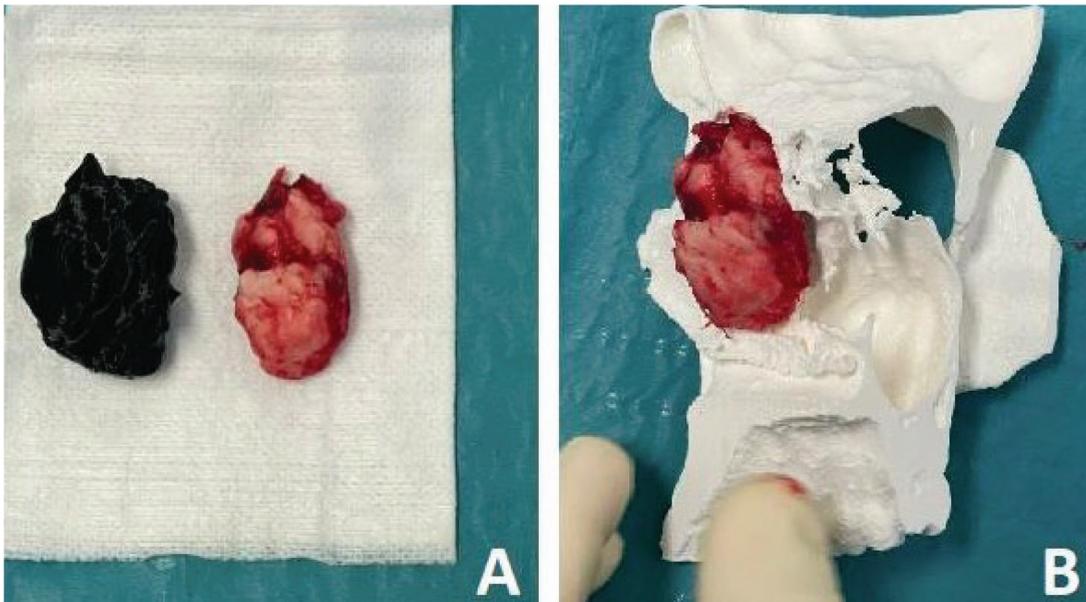


Figura 4. A: Comparación del modelo anatómico 3D con el tumor resecado y su tamaño exacto. B: El tumor en la pieza de mano anatómica.

que permite una estimación precisa del tamaño, la ubicación y las complicaciones asociadas. La RMN también es útil en el diagnóstico diferencial de mucocele concomitante y en casos de invasión intracraneal u orbitaria [5].

Las complicaciones descritas pueden ser los mucocelos antes mencionados, destrucción de la

pared anterior de los senos paranasales, extensión intracraneal, abscesos palpebrales y cerebrales, neumoencéfalo, sinusitis o invasión orbitaria, por lo que la cirugía precisa es de suma importancia [6].

En la mayoría de los casos los osteomas permanecen asintomáticos y se diagnostican cuando alcanzan un tamaño considerable con

complicaciones concomitantes, o como hallazgo en estudios realizados por otro motivo. La escisión quirúrgica está indicada cuando hay manifestaciones clínicas, en tumores grandes y en tumores en crecimiento.

Las recurrencias son raras y la mayoría de ellas pueden eliminarse mediante un abordaje endoscópico. En algunos casos, es necesario un enfoque multidisciplinar [7-9].

El tratamiento quirúrgico de los osteomas de senos paranasales debe ser individualizado. Aunque el abordaje endoscópico suele ser la primera opción terapéutica, en ocasiones debemos utilizar otro tipo de abordajes dependiendo de la localización, tamaño del tumor y posibles complicaciones, incluyendo abordajes combinados endoscópico y abierto con participación de neurocirugía o cirugía maxilofacial, como en uno de los casos que presentamos. La elección del abordaje quirúrgico a menudo parece ser independiente del tamaño del osteoma y es probable que la decisión se tome en función de la experiencia del cirujano, el equipo disponible y el conocimiento de las diferentes técnicas quirúrgicas [10].

La necesidad de pruebas de imagen no solo para el diagnóstico sino también para evaluar la localización y posibles complicaciones a la hora de planificar las cirugías es fundamental. Con la ayuda de los navegadores se facilita esta planificación, aunque tiene el inconveniente de que no son imágenes en tiempo real.

Los modelos anatómicos impresos en 3D son ampliamente utilizados en el campo quirúrgico. Ya en un artículo de revisión de 2015, Tack et al muestran cómo múltiples especialidades como cirugía cardiovascular, neurocirugía vascular, cirugía dental, cirugía general, cirugía maxilofacial, neurocirugía, cirugía craneal/orbital, ortopedia y cirugía de columna utilizan modelos anatómicos para la planificación quirúrgica [11]. En especialidades quirúrgicas como traumatología o cirugía maxilofacial, las guías quirúrgicas son ahora el tipo más común de aplicación impresa en 3D [11].

La tecnología y el cuidado de la salud avanzan en la medicina personalizada. La impresión 3D también está emergiendo como una tecnología clave en áreas como la otorrinolaringología [1]. Di Gesù en 2020 ya publicó una revisión que describe los usos de la impresión 3D y la bioimpresión para el tratamiento de trastornos de oído, nariz y garganta [2,12].

Los modelos impresos en 3D pueden imitar todas las formas y tamaños necesarios en las anatomías de pacientes reales, como en el caso de osteoma y cráneo que presentamos. La posibilidad de tocar la pieza estéril en tamaño real nos facilitó posicionarnos anatómicamente y tridimensionalmente durante la cirugía, de forma que el avance de la escisión fue más fiable, más preciso y por tanto más seguro, tal y como se refleja en el grado de satisfacción del cirujano en la escala de Likert. No tuvimos complicaciones intraoperatorias ni postoperatorias y se redujo el tiempo quirúrgico, hallazgos previamente descritos por otros autores [13]. Se ha argumentado que la introducción de la sensación sensorial táctil proporciona una mejor comprensión de las delicadas estructuras cercanas y minimiza los procedimientos innecesarios, cosa que puede reflejarse en una reducción de las complicaciones perioperatorias [1,13,14].

Muellman publicó un estudio sobre el manejo de tumores petroclivales utilizando modelos 3D específicos en pacientes para la planificación preoperatoria de la resección tumoral. Esos modelos se utilizaron para medir la fidelidad de las estructuras anatómicas impresas. Los autores descubrieron que los modelos impresos en 3D eran útiles para la planificación preoperatoria, ya que proporcionaban réplicas auténticas de tumores en relación con las estructuras óseas [15]. En nuestras imágenes posquirúrgicas se puede confirmar el mismo hallazgo comparando el modelo anatómico 3D con el tumor resecado y su tamaño exacto. (Figura 4)

La innovación tecnológica con estos modelos anatómicos 3D con guías quirúrgicas introduce

nuevas herramientas para facilitar, precisar y planificar cirugías, reduciendo tiempos y complicaciones de los procedimientos. Esto permite la posibilidad de desarrollar modelos para implantes personalizados de materiales biológicos como las mallas de titanio del prototipo para la reconstrucción de defectos de la pared orbitaria [16-18].

En cuanto a las ventajas, un estudio prospectivo, aleatorizado, doble ciego para evaluar la eficacia del uso de prototipos en cirugía de cabeza y cuello mostró que su uso conduce a una tendencia hacia la reducción del tiempo operatorio, colgajos óseos más pequeños y mejores resultados estéticos [19].

En general, diferentes autores coinciden en que las piezas impresas en 3D reducen el tiempo quirúrgico, tienen mejores resultados médicos y menor exposición a la radiación. También autores como Silva y Small señalaron la reducción en el uso de instrumental en el quirófano [20,21]. A pesar de esto, la impresión adicional y la planificación virtual por parte de un especialista pueden aumentar el costo total del procedimiento [11]. Se necesitan más investigaciones para determinar si los mayores costos de intervención se pueden equilibrar con las ventajas observables de esta nueva tecnología en cada especialidad. Existe la necesidad de un análisis formal de costo-efectividad [11].

El mayor costo de esta nueva tecnología hace cuestionable si la impresión 3D es rentable para todos los pacientes y aplicaciones. Varios autores han indicado que la impresión 3D médica tiene mayores ventajas cuando se utiliza para manejar casos complejos con cirujanos menos experimentados [11,15]. Tack también opina que los modelos anatómicos se pueden usar en combinación con guías quirúrgicas impresas para mejorar la comprensión de la anatomía en un área precisa y ser útiles para los estudiantes de medicina y residentes en aprendizaje durante el procedimiento. Esto conducirá a una mejor comunicación médico-paciente y a una mayor satisfacción del paciente, como ya han señalado otros autores

[11,22]. Hemos comprobado esta satisfacción del cirujano y asistentes en quirófano.

## CONCLUSIONES

El tipo de cirugía para estos tumores estará determinado por su tamaño y su ubicación. La innovadora tecnología 3D con modelos anatómicos, guías quirúrgicas y la posibilidad de implantes personalizados son una nueva herramienta disponible en quirófano. En nuestra experiencia, esta herramienta nos brinda una mejor comprensión de la anatomía y una mayor precisión intraoperatoria, así como mejores resultados sin complicaciones en casos complejos.

## AGRADECIMIENTOS

Los autores tienen que agradecer al laboratorio 3D del Hospital Parc Taulí de Sabadell la planificación quirúrgica por su colaboración.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Hong CJ, Giannopoulos AA, Hong BY, Witterick IJ, Irish JC, Lee J, et al. Clinical applications of three-dimensional printing in otolaryngology-head and neck surgery: A systematic review. *Laryngoscope*. 2019; 129:2045-2052. <https://doi.org/10.1002/lary.27831>.
2. Di Gesù R, Acharya AP, Jacobs I, Gottardi R. 3D printing for tissue engineering in otolaryngology. *Connect Tissue Res* 2020; 61:117-136. <https://doi.org/10.1080/03008207.2019.1663837>.
3. Zhong N, Zhao X. 3D printing for clinical application in otorhinolaryngology. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2017; 274:4079-4089. <https://doi.org/10.1007/s00405-017-4743-0>.
4. Arslan HH, Tasli H, Cebeci S, Gerek M. The management of the paranasal sinus osteomas. *J Craniofac Surg*. 2017; 28:741-745. <https://doi.org/10.1097/SCS.0000000000003397>.
5. Lee DH, Jung SH, Yoon TM, Lee JK, Joo YE, Lim SC. Characteristics of paranasal sinus osteoma

- and treatment outcomes. *Acta Oto-Laryngologica* 2015; 135:602-607. <https://doi.org/10.3109/00016489.2014.1003093>.
6. Gil-Carcedo LM, Gil-Carcedo ES, Vallejo LA, de Campos JM, Herrero D. Frontal osteomas: standardising therapeutic indications. *J Laryngol Otol* 2011; 125:1020-1027. <https://doi.org/10.1017/S0022215111001563>.
  7. Wolf A, Safran B, Pock J, Tomazic PV, Stammberger H. Surgical treatment of paranasal sinus osteomas: a single center experience of 58 cases. *Laryngoscope* 2019; 130:2105-2113. <https://doi.org/10.1002/lary.28299>.
  8. Patiño-Suárez K, Bravo-Escobar GA, Guzmán-Sánchez M, Brito-Vera JP, Figueroa-Ángel V. Osteoma de senos paranasales con invasión orbitaria: manejo multidisciplinario. *Caso clínico An Orl Mex* 2018; 63:173-179.
  9. Lim HR, Lee DH, Lim SC. Surgical treatment of frontal sinus osteoma. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology* 2020; 277:2469-2473.
  10. Humeniuk-Arasiewicz M, Stryjewska-Makuch G, Janik MA, Kolebacz B. Giant fronto-ethmoidal osteoma—selection of an optimal surgical procedure. *Braz J Otorhinolaryngol* 2018; 84:232-239.
  11. Tack P, Victor J, Gemmel P, Annemans L. 3D-printing techniques in a medical setting: a systematic literature review. *Biomed Eng Online*. 2016; 15:115. <https://doi.org/10.1186/s12938-016-0236-4>.
  12. VanKoeveering KK, Hollister SJ, Green GE. Advances in 3-dimensional printing in otolaryngology: a review. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2017; 143 :178-183.
  13. Lim Ch, Campbell D, Cook N, Erasmus J. A Case Series of Rapid Prototyping and Intraoperative Imaging in Orbital Reconstruction. *Craniomaxillofac Trauma Reconstr*. 2015; 8:105-110. <https://doi.org/10.1055/s-0034-1395384>.
  14. Niikura T, Sugimoto M, Lee SY, Sakai Y, Nishida K, Kuroda R, et al. Tactile surgical navigation system for complex acetabular fracture surgery. *Orthopedics*. 2014; 37:237-42. <https://doi.org/10.3928/01477447-20140401-05>.
  15. Muelleman TJ, Peterson J, Chowdhury NI, Gorup J, Camarata P, Lin J. Individualized surgical approach planning for petroclival tumors using a 3D printer. *J Neurol Surg B Skull Base* 2016; 77:243-248.
  16. Kozakiewicz M, Elgalal M, Loba P, Komunski P, Arkuszewski P, Broniarczyk-Loba A, et al. Clinical application of 3D pre-bent titanium implants for orbital floor fractures. *J Cranio-Maxillofac Surg*. 2009; 37:229-234. <https://doi.org/10.1016/j.jcms.2008.11.009>.
  17. Tang W, Guo LJ, Long J, Wang H, Lin YF, Liu L, et al. Individual design and rapid prototyping in reconstruction of orbital wall defects. *J Oral Maxillofac Surg*. 2010; 68:562-570. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2009.04.042>.
  18. Fanchette J, Faucon B, Cartry F, Ratajczak M. Reconstruction of the anterior wall of the frontal sinus by a custom-made titanium prosthesis after resection of a giant osteoma of the frontal sinus. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2019; 136:33-36.
  19. de Farias TP, Dias FL, Galvao MS, Boasquevisque E, Pastl AC, Sousa BA. Use of prototyping in preoperative planning for patients with head and neck tumors. *Head Neck*. 2014; 36:1773-1782. <https://doi.org/10.1002/hed.23540>.
  20. Silva A, Sampaio R, Pinto E. Patient-specific instrumentation improves tibial component rotation in TKA. *Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc*. 2014; 22:636-642. <https://doi.org/10.1007/s00167-013-26390>.
  21. Small T, Krebs V, Molloy R, Bryan J, Klika AK, Barsoum WK. Comparison of acetabular shell position using patient specific instruments vs. standard surgical instruments: a randomized clinical trial. *J Arthroplasty*. 2014; 29:1030-1037. <https://doi.org/10.1016/j.arth.2013.10.006>.
  22. Muller A, Krishnan KG, Uhl E, Mast G. The application of rapid prototyping techniques in cranial reconstruction and preoperative planning in neurosurgery. *J CranioFac Surg*. 2003; 14:899-914. <https://doi.org/10.1097/00001665-200311000-00014>.

## ARTÍCULO DE REVISIÓN

# CARACTERÍSTICAS CLÍNICAS Y PATOLÓGICAS DEL TUMOR DE CÉLULAS GRANULARES EN CUERDA VOCAL. REVISIÓN DE LA LITERATURA

## *Clinical and pathological characteristics of granular cell tumor in the vocal cord. A literature review*

María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ ; Jaime SANTOS-PÉREZ ; Victoria DUQUE-HOLGUERA ; María Consolación MARTÍN-PASCUAL ; Patricia VIVEROS-DÍEZ ; Diana Milena SABOYA-ROMERO 

*Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Servicio de Otorrinolaringología. Valladolid. España.*

*Correspondencia: mariasm\_46@hotmail.com*

Fecha de recepción: 21 de diciembre de 2023

Fecha de aceptación: 25 de marzo de 2024

Fecha de publicación: 27 de abril de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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 tumor de células granulares, conocido como tumor de Abrikossoff, es una rara neoplasia con un patrón histológico distintivo. Aunque generalmente benigno, su capacidad para volverse maligno y su afectación en diversos tejidos presenta desafíos en su diagnóstico y tratamiento. Por tanto, esta revisión bibliográfica tiene como objetivo abordar los aspectos clínicos, histológicos, moleculares y terapéuticos de este tumor cuando se localiza en las cuerdas vocales. Método: Para llevar a cabo esta revisión, se realizó una búsqueda bibliográfica en bases de datos médicas, sin restricciones de idioma, con un rango de fechas del 11 de octubre de 2022 al 10 de octubre de 2023. Se seleccionaron 12 artículos que incluyeron casos clínicos, series de casos y revisiones sistemáticas. Resultados: Tras la búsqueda, se obtuvieron 12 artículos relevantes que definen aspectos clínicos, histológicos e inmunohistoquímicos, así como enfoques de tratamiento. A pesar de la contribución de todas las fuentes, se ha dado prioridad a las investigaciones más recientes. Discusión: El tumor de células granulares es una neoplasia rara que puede afectar cualquier parte del cuerpo, pero es más común en la cabeza y el cuello, incluyendo las cuerdas vocales. Su presentación clínica varía, y puede volverse agresivo, con metástasis en algunos casos. El síntoma más común es la disfonía. La nomenclatura del tumor ha evolucionado con el tiempo, y la histología revela células

grandes con citoplasma eosinofílico granular y expresión de marcadores inmunohistoquímicos específicos. Por lo tanto, el diagnóstico diferencial es esencial para evitar errores de diagnóstico. El tratamiento principal es la extirpación quirúrgica, a menudo a través de métodos endoscópicos con láser de dióxido de carbono. Además, el seguimiento postoperatorio es crucial para la evaluación de la voz y la detección de complicaciones. Conclusiones: En resumen, esta revisión destaca la rareza y heterogeneidad del tumor de células granulares en las cuerdas vocales. Se enfatiza la importancia del diagnóstico diferencial, la inmunohistoquímica y el seguimiento postoperatorio para garantizar un manejo efectivo en las consultas de otorrinolaringología y la mejora de la calidad de vida de los pacientes afectados.

PALABRAS CLAVE: Tumor de células granulares; cuerda vocal.

SUMMARY: Introduction and Objective: Granular cell tumour, also known as Abrikossoff's tumour, is a rare neoplasm with a distinctive histological pattern. While generally benign, its potential for malignancy and its involvement in various tissues pose challenges in diagnosis and treatment. Therefore, the aim of this literature review is to address the clinical, histological, molecular, and therapeutic aspects of this tumour when it occurs in the vocal cords. Method: To conduct this review, a bibliographic search was performed in medical databases, without language restrictions, with a date range from October 11, 2022, to October 10, 2023. Twelve articles were selected, including clinical cases, case series, and systematic reviews. Results: Following the search, twelve relevant articles were obtained, defining clinical, histological, and immunohistochemical aspects, as well as treatment approaches. Despite the contribution of all sources, priority was given to the most recent research. Discussion: Granular cell tumour is a rare neoplasm that can affect any part of the body but is more common in the head and neck, including the vocal cords. Its clinical presentation varies, and it can become aggressive, with metastasis in some cases. The most common symptom is dysphonia. The nomenclature of the tumour has evolved over time, and histology reveals large cells with abundant granular eosinophilic cytoplasm and the expression of specific immunohistochemical markers. Therefore, a differential diagnosis is essential to avoid diagnostic errors. The primary treatment is surgical removal, often through endoscopic methods with carbon dioxide laser. Additionally, postoperative follow-up is crucial for voice assessment and the detection of complications. Conclusions: In summary, this review highlights the rarity and heterogeneity of granular cell tumours in the vocal cords. The importance of a differential diagnosis, immunohistochemistry, and postoperative follow-up is emphasized to ensure effective management in otolaryngology consultations and the improvement of patients' quality of life.

KEYWORDS: Granular cell tumor; vocal cord.

## INTRODUCCIÓN

El tumor de células granulares, también conocido como tumor de Abrikossoff en honor al patólogo ruso Alexei Ivanovich Abrikossoff, es una neoplasia rara que fue inicialmente descrita en el año 1926 [1]. Este peculiar tumor, ha atraído la atención de la comunidad médica y científica debido a su patrón histológico distintivo, que se caracteriza por la presencia de células granulares. A lo largo de los años, este tumor ha demostrado ser un enigma clínico, debido a sus características

únicas y su variabilidad en términos de presentación clínica [1,2].

Se trata de una patología benigna, pero cabe destacar su capacidad para malignizarse y su tendencia a afectar una amplia gama de tejidos y órganos [1]. Esta característica singular ha planteado desafíos significativos en el diagnóstico, el pronóstico y el tratamiento de los pacientes afectados, para los otorrinolaringólogos [1]. La falta de consenso en la nomenclatura y clasificación de este tumor ha contribuido a la complejidad en su manejo clínico.

En la era de la medicina personalizada y la genómica, es de vital importancia adentrarse en las características moleculares subyacentes que impulsan la oncogénesis en el tumor de células granulares [1]. Comprender a fondo los factores que contribuyen a su desarrollo y progresión es esencial para el diseño de enfoques terapéuticos más efectivos y precisos, con el fin de mejorar tanto el pronóstico como la calidad de vida de los pacientes afectados por esta enfermedad [1-3].

La presente revisión bibliográfica tiene como objetivo proporcionar una visión integral de la literatura científica existente sobre el tumor de células granulares en la cuerda vocal, abordando sus aspectos clínicos, histológicos, moleculares y terapéuticos, con el propósito de arrojar luz sobre esta enigmática entidad y contribuir a la toma de decisiones clínicas informadas.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una búsqueda bibliográfica de la literatura existente sobre el “tumor de células granulares en cuerda vocal” por dos revisores independientes en el mes de octubre de 2023. Estrategia de búsqueda en las bases de datos de Pubmed (<https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/>), Cochrane (<https://www.cochranelibrary.com/es/>), Medline (<https://medlineplus.gov/spanish/>). Para obtener la máxima sensibilidad en la búsqueda se alternaron los descriptores “granular cell tumor” “vocal cord” con el marcador booleano “AND”. Ecuación de la búsqueda: (“granular cell tumour”[All Fields] OR “granular cell tumor”[MeSH Terms] OR (“granular”[All Fields] AND “cell”[All Fields] AND “tumor”[All Fields]) OR “granular cell tumor”[All Fields]) AND (“vocal cords”[MeSH Terms] OR (“vocal”[All Fields] AND “cords”[All Fields]) OR “vocal cords”[All Fields] OR (“vocal”[All Fields] AND “cord”[All Fields]) OR “vocal cord”[All Fields])) AND (y\_10[Filter]). Fecha de publicación limitada del 11 de octubre de 2022 al 10 de octubre de 2023. Sin restricción de idioma. Se seleccionaron

un total de 12 artículos. Los datos se extrajeron del texto de los trabajos, de las tablas y de sus figuras.

## RESULTADOS

Como se muestra en el diagrama de flujo de la Figura 1, con la metodología descrita se obtuvieron, tras excluir 3 duplicados, 16 artículos, de los que tras el cribado que se detalla, seleccionamos 12, que comprenden 6 casos clínicos (de los cuales 3 realizan además una revisión de la literatura), 2 series de casos, 2 revisiones sistemáticas, 1 estudio descriptivo y 1 estudio de cohorte. A pesar de la contribución de todos los trabajos consultados, se ha dado prioridad en la selección de fuentes a las investigaciones más recientes. En la Tabla 1 (Anexo 1) se especifican los autores, país y año de publicación, tipo de estudio y los principales resultados considerados. Se han encontrado artículos procedentes de diversos países del mundo, lo cual indica que esta patología tiene una distribución internacional. Se empieza a publicar sobre esta enfermedad en el año 1953 bajo el término “mioblastoma” y a lo largo de los años ha ido cambiando la nomenclatura del proceso.

## DISCUSIÓN

El tumor de células granulares es una neoplasia rara que puede localizarse en cualquier parte del cuerpo. El 50% de estos tumores se ubican en la región de la cabeza y el cuello. En la laringe, son poco comunes y representan solo el 3-10% de todos los casos, afectando principalmente a las cuerdas vocales [4]. Ocurren con mayor frecuencia durante la cuarta a la sexta década de vida y es posible que sean más comunes en mujeres [5]. Si bien estos tumores suelen tener un crecimiento lento, pueden adquirir características agresivas, con metástasis a distancia en el 1% al 2% de los casos [5], por lo que se recomienda vigilancia y seguimiento estrecho. En la laringe, el síntoma más común es la disfonía (81%), seguido de estridor (23%) y disnea (23%).

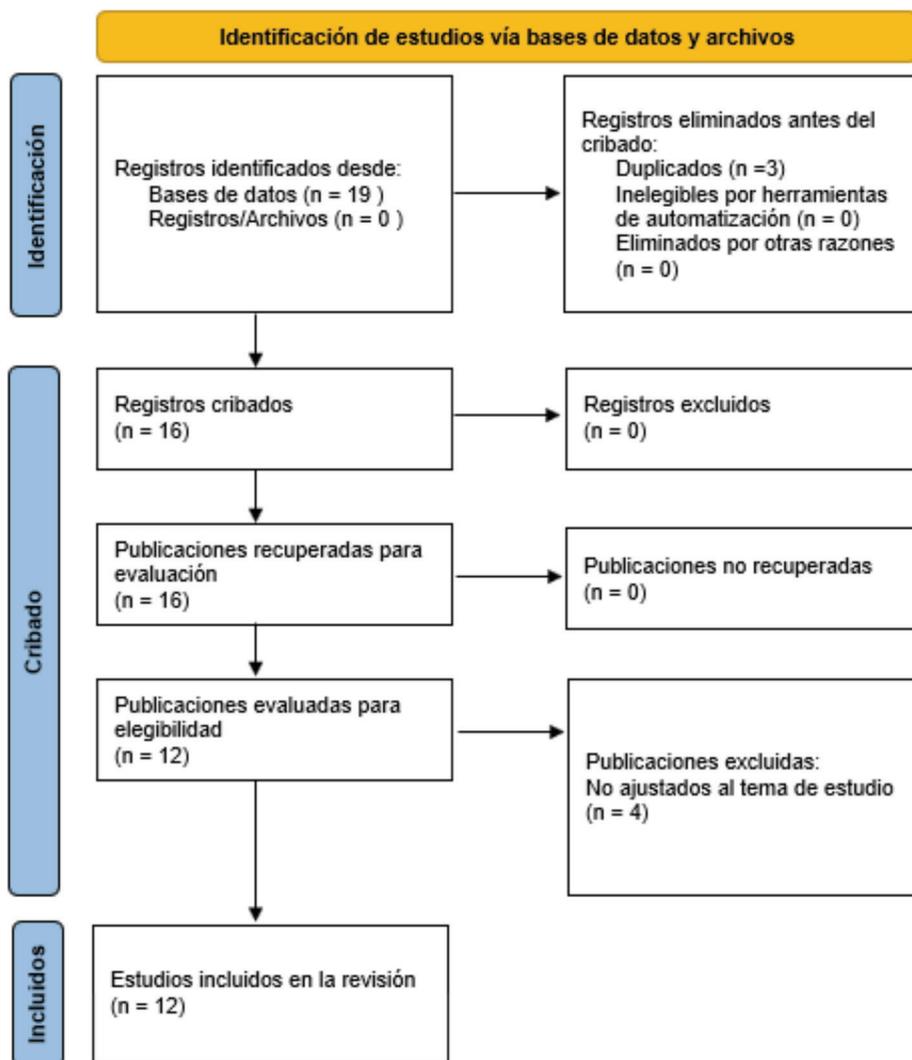


Figura 1. Diagrama de flujo PRISMA 2020 para nuevas revisiones sistemáticas que incluyeron búsquedas en bases de datos y registros.

En unos pocos casos, los pacientes refieren tos e intolerancia al ejercicio [4,6,7]. Respecto a la asociación entre la raza y el TCG parece haber una mayor incidencia en pacientes de origen africano, representando el 60% de todos los casos informados [8]. Macroscópicamente, estos tumores se caracterizan por ser masas bien delimitadas, pequeñas,

redondeadas, firmes, sésiles, cubiertas por mucosa, que crecen lentamente [9]. A menudo se asemejan a quistes epidermoides y de retención, a pólipos de las cuerdas vocales o a granulomas [5,9]. A diferencia de los TCG, los pólipos tienden a tener un aspecto gelatinoso y suelen estar asociados con el abuso vocal. Los TCG presentan un aspecto fibroso [5].

El desarrollo de granulomas puede desencadenarse por agresiones químicas o físicas en la laringe [5]. La caracterización celular de los TCG se caracteriza por la hiperplasia pseudoepitelial y la presencia ocasional de mitosis normales, lo que podría llevar a un diagnóstico erróneo de carcinoma de células escamosas. Sin embargo, la ausencia de hiperplasia nuclear o pleomorfismo y la presencia de células granulares pueden ayudar a distinguir entre estas enfermedades [5]. La microscopía se caracteriza por láminas de células grandes, redondas o poligonales, con citoplasma eosinofílico granular abundante [5,9]. En el estudio de Sachdeva H. et al. destacan que las células del TCG son positivas para S-100, vimentina, enolasa específica de neuronas, glicoproteína asociada a la mielina (anticuerpo Leu-7) y CD68 (KP-1), y negativas para queratina, desmina, mioglobina y actina específica del músculo [6]. En el estudio llevado a cabo por Handra-Luca A. se pone de manifiesto que este tipo de tumores expresan la proteína/gen del gen WT1 (Wilms-tumor-1), conocida por expresarse en neurofibromas periféricos y schwannomas, lo cual respalda la derivación neural de los TCG [10]. Al paciente del caso clínico de Palicelli A. et al. se le realizó una biopsia inicial que fue diagnosticada como TCG debido a la positividad inmunohistoquímica para S-100. Tras la extirpación completa, el tumor resultó ser un rabdomioma laríngeo de tipo adulto, por lo que realizaron una revisión sistemática de la literatura y concluyeron que la positividad para S-100 se encontró en hasta un 56% de los rabdomiomas de tipo adulto de la región de la cabeza y el cuello. Por lo que, dichos autores, aconsejan, que especialmente en material de biopsia fragmentado, se realicen diagnósticos diferenciales de los TCG con los rabdomiomas laríngeos, los tumores oncocíticos y los paragangliomas [11]. En la serie de casos durante 12 años de Saraydaroglu O. et al. 657 pacientes fueron diagnosticados de tumores laríngeos, y dentro de los tumores no epiteliales benignos los más comunes fueron el schwannoma y el hemangioma, seguidos por el neurofibroma

plexiforme y el TCG [12]. El tratamiento para los TCG laríngeos es la extirpación quirúrgica [4,13]. No existen pautas relevantes a seguir, por lo que se han empleado diversas estrategias. La mayoría de los casos se manejan endoscópicamente con bisturí frío o láser [13-15]. La extirpación endoscópica con láser de dióxido de carbono es una técnica quirúrgica efectiva y mínimamente invasiva que puede ayudar a preservar la función de las cuerdas vocales y la calidad de vida [5]. En el caso de Hogan C. et al. utilizaron láser dióxido de carbono para extirpar la tumoración a un niño de once años [13]. La microcirugía es una cirugía segura, pero se recomienda tener presentes las posibles complicaciones como el edema de la laringe o la parálisis de las cuerdas vocales [14]. En el caso clínico de Reiter R. et al. en la revisión a las 2 semanas de su fonocirugía, el paciente no presentaba síntomas, se observó una clara mejoría en la calidad de la voz y la ronquera [15]. El seguimiento regular es crucial para garantizar la mejoría de la voz y detectar complicaciones o la falta de mejoría en los síntomas [13-15].

## CONCLUSIONES

El tumor de células granulares se configura como una neoplasia poco frecuente, manifestándose en hasta un 50% de los casos en la región anatómica de la cabeza y el cuello. Su incidencia se torna más notoria en el rango etario que abarca desde la cuarta hasta la sexta década de la vida, siendo más prevalente en mujeres y en individuos de ascendencia africana, con un predominio del 60%. La sintomatología asociada a esta entidad patológica se manifiesta principalmente a través de la disfonía, presente en el 81% de los casos, seguida de manera menos frecuente por el estridor (23%) y la disnea (23%). Desde una perspectiva macroscópica, se destaca la delimitación precisa y el crecimiento gradual de las masas tumorales. A nivel microscópico, se caracteriza por la hiperplasia pseudoepitelial y la eventual presencia de mitosis normales. Los estudios inmunohistoquímicos

han revelado la expresión de marcadores específicos, entre los cuales se incluyen S-100, vimentina, enolasa específica de neuronas, glicoproteína asociada a la mielina (anticuerpo Leu-7) y CD68 (KP-1). La presencia de la proteína/gen WT1 (Wilms-tumor-1) en los tumores de células granulares respalda su origen neural. En la práctica clínica, resulta imperativo llevar a cabo diagnósticos diferenciales con rabdomiomas laríngeos, tumores oncocíticos y paragangliomas. El enfoque terapéutico primordial consiste en la extirpación quirúrgica, dada la naturaleza potencialmente agresiva de la patología, lo que subraya la necesidad de una estrecha vigilancia y seguimiento continuo de los pacientes afectados.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Smith J, Johnson A, Brown C, et al. Granular Cell Tumor: A Comprehensive Review of Clinical, Histological, and Molecular Aspects. *Journal of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery*. 2018;42(3):123-135.
2. Miller R, White E, Jones K, et al. Molecular Insights into Granular Cell Tumor Oncogenesis: Current Perspectives and Future Directions. *Cancer Genetics*. 2019;215-216:25-32.
3. Garcia M, Rodriguez P, Gonzalez S, et al. Diagnosis and Management of Granular Cell Tumor: A Multidisciplinary Approach. *International Journal of Otolaryngology*. 2020;6825149. <https://doi.org/10.1155/2020/6825149>
4. Cura MB, Labeledz G, Degli Uomini L, Palacios Huatuco RM. Granular cell tumor of the vocal cord: Case Report and Literature Review. *Int J Surg Case Rep [Internet]*. 2022;95:107193.
5. Aldokhayel F, Alolaywi A, Alhussinan K, Alhudaithi D, Alomar K, Bin Manie M. Pediatric laryngeal granular cell tumor: Case report and literature review. *Ear Nose Throat J [Internet]*. 2023;1455613231202205.
6. Fraser AL, Anthony BP. Granular cell tumor in a 13-year-old girl. *Cureus [Internet]*. 2021;13(11):e19199.
7. Valldeperes A, Thomas-Arrizabalaga I, Alvarez-Ceballos L, Landa M. Granular Cell Tumors of the Larynx: A Clinicopathologic Study of Five Patients. *J Voice*. 2020; 34(6):945-948. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2019.04.017>
8. Mur TA, Pellegrini WR, Tracy LF, Levi JR. Laryngeal granular cell tumors in children: A literature review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol [Internet]*. 2020;138:110193.
9. Sachdeva H, Nirupama M, Padmanabha N, Sreeram S, Lobo FD, Pai R, et al. Histopathological study of benign tumours of the larynx: A descriptive study in coastal karnataka. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg [Internet]*. 2022;74(Suppl 2):2019-2023.
10. Handra-Luca A. WT1 Expression in Adult Granular Cell Tumor of the Vocal Cord and Tongue. *Head Neck Pathol*. 2016;10(2):275-277.
11. Palicelli A, Ramponi A, Valente G, Boldorini R, Balbo Mussetto A, Zanelli M. S-100 Immunohistochemical Positivity in Rhabdomyoma: An Underestimated Potential Diagnostic Pitfall in Routine Practice. *Diagnostics (Basel)*. 2022;12(4):892.
12. Saraydaroglu O, Narter S, Ozsen M, Coskun H. Non-epithelial tumors of the larynx: case series of 12 years. *Eur Arch Otorhinolaryngol [Internet]*. 2019;276(10):2843-2847.
13. Hogan C, Acharya V, Tsietsiou Y, Taghi A. Laryngeal granular cell tumour: a very rare diagnosis for a child presenting with hoarse voice in the UK. *BMJ Case Reports*. 2020;13(7), e232851.
14. Reiter R, Hoffmann T. Phonochirurgie – eine retrospektive Analyse von 400 Eingriffen [Phon microsurgery - a retrospective analysis of 400 cases]. *Laryngorhinootologie*. 2017;96(9):597-606.
15. Reiter R, Ruess J, Brosch S, Pickhard A. Therapie-refraktäre Heiserkeit bei Granularzelltumor der Stimmlippe [Refractory Hoarseness in Granular Cell Tumor of the Vocal Cord]. *Laryngorhinootologie*. 2016;95(2):125-126.

CARACTERÍSTICAS CLÍNICAS Y PATOLÓGICAS DEL TUMOR DE CÉLULAS GRANULARES EN CUERDA VOCAL.  
REVISIÓN DE LA LITERATURA

MILLÁN-GONZÁLEZ MS, SANTOS-PÉREZ J, DUQUE-HOLGUERA V ET AL.

ANEXO 1

Tabla 1. Tabla de resultados por orden de aparición en el artículo.

Autores	Año y país	Estudio	Principales resultados
Cura et al. [4]	2022 Argentina	CR y RS	Los TCG son neoplasias poco comunes, siendo la región de la cabeza y el cuello el lugar más frecuente, representando el 3-10% de los casos en la laringe. Los TCG laríngeos, a pesar de su rareza, deben considerarse en el diagnóstico diferencial de hombres adultos con disfonía persistente.
Aldokhayel et al. [5]	2023 Arabia Saudí	CR y RS	Caso de un niño de 4 años con un GCT laríngeo que presentaba ronquera persistente durante 2 años. La extirpación exitosa del tumor mediante cirugía microlaríngea con ablación láser resultó en la resolución de los síntomas y una recuperación sin complicaciones, subrayan la importancia de considerar los GCT en el diagnóstico diferencial de pacientes con disfonía, incluidos los niños.
Fraser et al. [6]	2021 Estados Unidos	CR	Los tumores de células granulares son lesiones benignas poco comunes en tejidos blandos que generalmente se manifiestan en la cabeza y el cuello, siendo más frecuentes en adultos y raramente observados en niños. Caso de una niña de 13 años con síntomas de ronquera desde la infancia, tratada sin éxito por asma, reflujo, alergias y bronquitis, cuya exploración reveló un tumor de células granulares en la cuerda vocal. La resolución de la disfonía se logró mediante extirpación quirúrgica, y la paciente está recibiendo terapia vocal.
Valdeperes et al. [7]	2019 España	Serie de casos	Serie de 5 casos de TCG entre 2006 y 2018, con afectación de la cuerda vocal verdadera derecha. Fueron diagnosticados y tratados con éxito mediante resección microquirúrgica. Los tumores de células granulares son lesiones poco frecuentes que los clínicos deben tener en cuenta dentro del diagnóstico diferencial de tumores laríngeos. La parte media a posterior de la cuerda vocal es el sitio más común para el GCT laríngeo, y la ronquera y la disfonía son las quejas más frecuentes. Se considera que la extirpación local, conservadora pero completa, es la terapia definitiva.
Mur et al. [8]	2020 Estados Unidos	RS	Los tumores de células granulares en la laringe son extremadamente raros en la población pediátrica. Se identificaron 38 niños con tumor de células granulares en la laringe, con edades comprendidas entre 4 y 16 años. El síntoma más común fue la disfonía. Cinco pacientes habían sido tratados previamente por asma. En laringe, el 49% presentaba tumores subglóticos, mientras que el 43% se encontraba a nivel de las cuerdas vocales. Los tumores subglóticos estaban ubicados anteriormente el 42% del tiempo y posteriormente el 53%. Cuatro pacientes presentaron enfermedad multifocal. Alrededor de la mitad de los pacientes fueron tratados con escisión con bisturí frío y/o láser de CO <sub>2</sub> , el 31% mediante laringofisura y dos requirieron laringectomía. Hubo cuatro casos documentados de recurrencia, con intervalos de 4 meses a 3 años después del tratamiento.
Sachdeva et al. [9]	2022 India	Estudio Descriptivo	Se realizó un estudio descriptivo de hallazgos histopatológicos y laringoscópicos de lesiones laríngeas benignas durante un período de 4.5 años. De los treinta y seis pacientes estudiados, la edad promedio fue de 42 años. La queja más común fue la ronquera en el 87.5% de los casos. Se informó y confirmó mediante inmunohistoquímica un caso de rabdomioma y tumor de células granulares. Las lesiones benignas raras y las lesiones sugestivas de malignidad en la laringoscopia requieren evaluación histopatológica. Es obligatorio estudiar las biopsias extirpadas de la laringe, ya que lesiones aparentemente similares pueden variar desde neoplásicas hasta francamente malignas.
Handra-Luca et al. [10]	2015 Francia	RS	Los resultados sugieren que la proteína WT1 se expresa en la mayoría de las células tumorales de los TCG estudiados, respaldando su derivación neural. La proteína WT1 se expresa en los TCG de cuerda vocal y lengua, lo que es consistente con la hipótesis de su origen neurogénico. Se requieren investigaciones adicionales para comprender completamente la heterogeneidad intracitoplasmática de la expresión de WT1, que difiere del patrón homogéneamente granular de la expresión de las proteínas S100 y CD68.

*(continúa)*

CARACTERÍSTICAS CLÍNICAS Y PATOLÓGICAS DEL TUMOR DE CÉLULAS GRANULARES EN CUERDA VOCAL.  
REVISIÓN DE LA LITERATURA

MILLÁN-GONZÁLEZ MS, SANTOS-PÉREZ J, DUQUE-HOLGUERA V ET AL.

Tabla 1. Tabla de resultados por orden de aparición en el artículo (*continuación*).

Autores	Año y país	Estudio	Principales resultados
Paliceli et al. [11]	2022 Italia	CR y RS	Caso de un hombre de 66 años que presentó lesión de 2,8 cm en cuerda vocal izquierda. Una biopsia incisional fragmentada fue diagnosticada como un tumor de células granulares, debido a la positividad inmunohistoquímica para S-100. Después de la extirpación, el tumor resultó ser un rabdomioma laríngeo de tipo adulto. Según esta breve revisión sistemática de la literatura, se encontró positividad para S-100 (por lo general variable, a menudo débil o focal) en 19/34 (56%) de los rabdomiomas de tipo adulto en la región de cabeza y cuello. Especialmente en material de biopsia fragmentado, los diagnósticos diferenciales de los rabdomiomas laríngeos pueden incluir tumores de células granulares, tumores oncocíticos de las glándulas salivales o de origen diferente, y paragangliomas.
Saraydaroglu et al. [12]	2019 Turquía	Serie de casos	Entre 2005 y 2018, se diagnosticaron 657 pacientes con tumor laríngeo, identificándose 13 pacientes con tumores no epiteliales. La mayoría de los pacientes eran hombres, con edades comprendidas entre los 13 y 93 años. Las localizaciones más comunes de los tumores fueron las cuerdas vocales y subglotis. Siete pacientes fueron diagnosticados con tumores malignos y seis con tumores benignos. El condrosarcoma fue el tumor mesenquimal maligno más común, seguido por el leiomiomasarcoma, fibrosarcoma y liposarcoma. Los tumores no epiteliales benignos más comunes fueron el schwannoma y el hemangioma, seguidos por el neurofibroma plexiforme y el tumor de células granulares. Los tumores no epiteliales de la laringe son raros y presentan una amplia diversidad histológica. Los estudios inmunohistoquímicos son de gran importancia en el diagnóstico de estos tumores. Se debe tener en cuenta la posibilidad de tumores mesenquimales primarios de la laringe en el diagnóstico diferencial.
Hogan et al. [13]	2020 Reino Unido	CR	Caso raro de una niña de 11 años con un TCG laríngeo en la cuerda vocal. Los TCG son entidades clínicas raras, se cree que surgen de las células de Schwann. Hay muy pocos casos pediátricos en la literatura, por lo que se sabe poco sobre su historia natural o las estrategias de manejo indicadas. Estas lesiones pueden ser extirpadas con un trauma mínimo de las cuerdas vocales
Reiter et al. [14]	2017 Alemania	Estudio de cohorte	Análisis retrospectivo de 400 intervenciones consecutivas de fonomicrocirugía. Los pólipos en cuerdas vocales (36 %), los quistes (12 %) y la parálisis (10 %) fueron predominantes. Después de la intervención, la calidad de la voz mejoró en el 90 % de todos los casos. En el 14 % se necesitó terapia vocal después de la cirugía debido a hiperfunción. Un paciente desarrolló un edema de la laringe y otro paciente una parálisis temporal de la cuerda vocal del lado opuesto. El examen histológico reveló hallazgos incidentales, como un tumor maligno de células gigantes osteoclasticas, un tumor de células granulares y un carcinoma in situ de la cuerda vocal que requerían cirugía y seguimiento adicionales. La fonomicrocirugía es una terapia segura y efectiva. El examen histológico también es útil en pacientes con lesiones macroscópicamente no sospechosas para reconocer entidades tumorales raras o malignas. Se recomienda la observación de pacientes con detección temprana, así como la terapia de complicaciones como el edema de la laringe o la parálisis de las cuerdas vocales.
Reiter et al. [15]	2016 Alemania	CR	Caso de un paciente de 29 años con disfonía de 12 meses de evolución. La evaluación inicial reveló una masa de color crema bien definida en el tercio posterior de la cuerda vocal izquierda. A pesar de la terapia de voz y otras medidas, no se observó mejoría significativa después de 3 meses. Una microlaringoscopia y ablación de los hallazgos confirmaron histológicamente un tumor de células granulares no maligno. En el seguimiento postoperatorio, el paciente experimentó mejoría en la calidad vocal y la disfonía.

(CR= Case Report; RS= Revisión Sistemática; TCG= tumor de células granulares)

## ARTÍCULO DE REVISIÓN

# UTILIZACIÓN DE TERAPIA DE PRESIÓN NEGATIVA VAC<sup>®</sup> EN EL TRATAMIENTO LA FASCITIS NECROTIZANTE CERVICAL. REVISIÓN SISTEMÁTICA

## *Necrotizing fasciitis of the neck management with vacuum assisted therapy (VAC). Systematic review*

Dolores RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ<sup></sup>; Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ<sup></sup>;  
Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS<sup></sup>

*Hospital Universitario Virgen de la Victoria de Málaga. Universidad de Málaga. Málaga. España.*

*Correspondencia: cristinasanzsanchez03@gmail.com*

Fecha de recepción: 9 de marzo de 2024

Fecha de aceptación: 16 de mayo de 2024

Fecha de publicación: 18 de mayo de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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 fascitis necrotizantes son infecciones con riesgo vital. Se precisa un índice de sospecha alto para un diagnóstico y manejo tempranos. Aunque el tratamiento sea adecuado, los desbridamientos quirúrgicos dejan grandes defectos cutáneos de difícil tratamiento y control. Los sistemas de presión negativa VAC permiten una curación temprana de estos defectos tisulares. Método: Se realizó una revisión sistemática en PubMed, EMBASE, Cochrane Library, Scopus, CINAHL y Scielo, sin restricción de idioma, incluyendo todos los artículos publicados hasta el 31 de julio de 2023. Resultados: 11 estudios originales cumplieron los criterios de inclusión (10 reportes de casos y 1 serie de casos), con un total de 18 pacientes con fascitis cervical tratados con VAC. Se muestra una mayor prevalencia en hombres, la principal comorbilidad es la diabetes mellitus y el principal origen el odontógeno. El 100% de los pacientes precisan desbridamiento quirúrgico, la media de utilización de la VAC es de 25.7 días y ningún paciente de los estudiados falleció. Discusión: La presentación de fascitis necrotizante en cabeza y cuello es rara, asocia una respuesta inflamatoria que requiere tratamiento multidisciplinar. La VAC ayuda

a promover la cicatrización al disminuir la carga bacteriana, disminuye el número de desbridamientos y acorta la estancia hospitalaria. Conclusiones: La terapia de presión negativa se ha mostrado como opción terapéutica eficaz y segura para el tratamiento de fascitis necrotizantes en otras regiones, consideramos que la realización de un estudio reglado sobre su uso a nivel cervical podría aportar evidencia científica a favor de su utilización.

**PALABRAS CLAVE:** Fascitis necrotizante cervical; terapia de presión negativa; VAC; LRINEC; desbridamiento quirúrgico.

**SUMMARY:** Introduction and objective: Necrotizing fasciitis are life-threatening infections. A high index of suspicion is required for early diagnosis and management. Even if the treatment is adequate, surgical debridements leave large skin defects that are difficult to treat and control. VAC negative pressure systems allow for early healing of these tissue defects. Method: A systematic review was carried out in PubMed, EMBASE, Cochrane Library, Scopus, CIHAHL and Scielo, without language restriction, including all articles published until July 31, 2023. Results: 11 original studies met the inclusion criteria (10 case reports and 1 case series), with a total of 18 patients with cervical fasciitis treated with VAC. A higher prevalence is shown in men, the main comorbidity is diabetes mellitus and the main origin is odontogenic. 100% of patients require surgical debridement, the average use of VAC is 25.7 days and none of the patients studied died. Discussion: The presentation of necrotizing fasciitis in the head and neck is rare, it associates an inflammatory response that requires multidisciplinary treatment. VAC helps promote healing by reducing the bacterial load, reduces the number of debridements, and shortens hospital stay. Conclusions: Negative pressure therapy has been shown to be an effective and safe therapeutic option for the treatment of necrotizing fasciitis in other regions. We consider that conducting a regulated study on its use at the cervical level could provide scientific evidence in favor of its use.

**KEYWORDS:** Cervical necrotizing fasciitis; negative pressure; Vacuum-Assisted Device; VAC; LRINEC; surgical debridement.

## INTRODUCCIÓN

Las fascitis necrotizantes de tejidos blandos son infecciones con riesgo vital caracterizadas por necrosis del tejido celular subcutáneo, la fascia o el músculo, que asocian gran morbilidad y mortalidad [1]. Están típicamente causadas por bacterias productoras de toxinas y se caracteriza clínicamente por una evolución muy rápida de la enfermedad con importante destrucción tisular. Cuando la infección se hace sintomática, la evolución de la enfermedad se progresa en horas, por lo que el diagnóstico y tratamiento precoz son cruciales para mejorar la supervivencia [2]. Pese a ser una patología de baja incidencia, su importancia está dada

por la gravedad del cuadro, con una elevada tasa de mortalidad, que fluctúa entre el 40% y 80% [3].

El tratamiento incluye cirugía agresiva, antibioticoterapia y el apoyo sistémico en Unidad de Cuidados Intensivos [3]. El tratamiento quirúrgico invasivo temprano es clave para supervivencia, siendo necesario un alto índice de sospecha en pacientes con eritema e induración de la piel, dolor severo desproporcionado a los hallazgos físicos, sensibilidad a la palpación en áreas no eritematosas, progresión rápida e inestabilidad hemodinámica [4]. Sin embargo, los desbridamientos quirúrgicos pueden dejar grandes defectos tisulares que pueden ser difíciles de cerrar incluso con el uso de colgajos o injertos. Los sistemas de presión negativa VAC® (Vacuum Assisted Closure) son

dispositivos que han demostrado una resolución más temprana de este tipo de heridas mediante la creación de un microambiente que mejora la perfusión, la migración de fibroblastos, la mitosis y proliferación celular, evacuando el exudado de la herida y controlando la posibilidad de sobreinfección bacteriana, sin embargo, son infrauti- lizados [5].

Nuestro objetivo principal fue investigar si el uso del sistema VAC en pacientes con fascitis necrotizante cervical puede mejorar la evolución de la herida quirúrgica y, por tanto, la supervivencia global del paciente.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una revisión sistemática en las bases de datos PubMed, EMBASE, Cochrane Library, Scopus, CINAHL y Scielo, de todos los artículos publicados hasta el 31 de julio de 2023 de acuerdo con las pautas PRISMA para la realización de revisiones sistemáticas [6].

En la búsqueda inicial se utilizaron los términos ((**cervical necrotizing fasciitis**) OR (**cervical necrotizing fascitides**) OR (**necrotizing fasciitis of head and neck**) OR (**fascitis necrotizante cervical**)) AND ((**Vacuum-Assisted Device**) OR (**VAC**) OR (**vacuum therapy**) OR (**negative pressure**) OR (**terapia de presión negativa**)) adaptados a cada buscador. La pregunta PICO que nos planteamos fue la siguiente: ¿Podrían ser útiles los sistemas de presión negativa para mejorar los resultados en términos de evolución y supervivencia en los pacientes con fascitis necrotizante cervical?

Se incluyeron en el estudio aquellos artículos publicados sobre uso de terapia de presión negativa en fascitis necrotizante cervical con texto completo disponible; pacientes mayores de 18 años; metaanálisis, revisiones sistemáticas, ensayos clínicos, estudios prospectivos, retrospectivos y casos clínicos; estudios escritos en español, inglés, francés o cualquier otro idioma si han sido traducidos a alguno de los dos idiomas anteriores.

Se excluyeron de la revisión publicaciones con material redundante; estudios donde no se especifique el tipo de cura realizada tras la intervención quirúrgica; estudios en animales; heridas complejas cervicales sin fascitis necrotizante diagnosticada; y aquellos en el que no se especifique el tratamiento realizado.

Se realizó la selección de artículos de forma estandarizada siguiendo los criterios anteriormente descritos. Los textos completos de los artículos que cumplieron criterios de inclusión fueron revisados por dos de los autores. Estos mismos, eligieron y extrajeron las variables para la revisión que fueron completadas por un tercero. Las discrepancias entre los dos autores se resolvieron por consenso, y en caso de no existir acuerdo, un tercer autor tomaba la decisión. Finalmente, se obtuvieron 11 artículos que cumplían los criterios de inclusión y exclusión para esta revisión. De cada uno, se obtuvieron los siguientes datos por duplicado: autor, año de publicación, país de la publicación, número de pacientes incluidos en cada artículo, edad, sexo, comorbilidades de los pacientes, origen de la fascitis necrotizante, LRINEC (Laboratory Risk Indicator for Necrotizing Fasciitis), total de desbridamientos quirúrgicos realizados, germen detectado, días de uso de VAC, necesidad de realización de traqueotomía, total de días de hospitalización en UCI y supervivencia. Se consideró la posibilidad de sesgo de publicación, el sesgo de pacientes no diagnosticados por no acudir a un centro sanitario y posibilidad de falta de homogeneidad entre artículos.

## RESULTADOS

En la Figura 1 se resume la selección de artículos mediante diagrama de flujo PRISMA(6). Se encontraron 44 artículos en total. Tras el eliminar duplicados y aquellos que no cumplían los criterios de inclusión, se obtuvieron 16 artículos para revisión de su texto completo. Se excluyeron 5 artículos por incumplir criterios de inclusión y exclusión, 1 que trata sobre fascitis necrotizante

en diferentes regiones anatómicas, 1 duplicado no detectado previamente, 1 que trataba sobre abscesos cervicales sin fascitis necrotizante, 1 que versa sobre tratamiento de fascitis necrotizante con sistema diferente al VAC y 1 cuyo texto no estaba disponible por embargo de la revista. Finalmente, fueron 11 los artículos incluidos en la revisión.

Los artículos se han clasificado según su año de su publicación en la Tabla 1 (Anexo 1). Se obtuvieron un total de 18 pacientes, 3 (16.6%) fueron mujeres y 15 (83.3%) hombres, con una edad media de 49.72 años. El origen de los artículos fueron 2 de Estados Unidos y 1 artículo de Austria, Bélgica, Italia, Corea, Alemania, Reino Unido, Turquía, Argentina y Singapur. La comorbilidad más frecuentemente asociada fue la diabetes mellitus tipo 2 en 6 pacientes (33.33%), seguidos por neoplasias cervicales en 4 pacientes (22,22%), 1 con otras comorbilidades como HTA, obesidad y TVP (5,55%), no presentando antecedentes de interés 7 pacientes (38.9%)

En 6 casos el origen de la fascitis necrotizante cervical fue odontógeno (33.33%), 4 por infección del traqueostoma (22.22%), 2 por absceso cervical (11.11%), 2 infecciones amigdalares (11.11%), 1 faringitis (5.56%), 1 submaxilitis (5.56%), 1 mastoiditis (5.56%) y 1 carbunco (5.56%). En los 10 casos donde se ha reflejado el LRINEC del paciente, 9 presentan un valor mayor o igual a 6 (90%).

El cultivo de la muestra obtenida en la herida quirúrgica tuvo un resultado de infección polimicrobiana en 9 pacientes (50%), infección por diferentes especies de la familia de los estreptococos en 5 (27.8%), infección por estafilococo aureus en 1 (5.5%) y no consta el resultado en 3 de ellos (16.7%).

El 100% de los pacientes precisó posteriores desbridamientos quirúrgicos, siendo la media de reintervenciones de 3.3. El sistema de presión negativa VAC para manejo de la herida quirúrgica presenta una media de 25.7 días de utilización entre los pacientes.

En 8 pacientes (50%) se precisó realizar traqueotomía quirúrgica para preservación y manejo de la vía aérea. 8 pacientes precisaron ser intervenidos para reconstrucción de gran defecto tisular una vez fue retirada la VAC. En dos casos no fue necesaria dicha reconstrucción y en 8 casos no detalló. 10 pacientes (55.5%) precisaron ingreso en UCI para resucitación y manejo de las complicaciones derivadas de la infección, con una media de estancia de 58.7 días.

Respecto a la supervivencia, ninguno de los pacientes estudiados falleció por complicaciones secundarias a la fascitis necrotizante.

## DISCUSIÓN

La fascitis necrotizante se presenta comúnmente en la región perineal, abdomen y extremidades, siendo rara a nivel de cabeza y cuello, constituyendo entre el 2,6 y 5% de todas las fascitis necrotizantes, aproximadamente, 4 de cada 1000 casos de fascitis necrotizante por año [4, 7, 8]. Su principal origen es la cavidad oral, comúnmente secundaria a una infección odontogénica [9, 10] a nivel periapical de los molares inferiores [11], y con menor frecuencia, puede estar relacionada con traumatismos o infecciones faríngeas [9, 12, 13]. Sin embargo, solo un 2.6% de todas las infecciones odontógenas desarrollan una fascitis necrotizante [14].

Esta infección es causada habitualmente por especies aerobias de estreptococos, especialmente el pyogenes, y de estafilococos, fundamentalmente el aureus, siendo en la mayoría de los casos polimicrobiana, con participación de microorganismos anaerobios [3, 15]. Precisa de un tratamiento empírico con antibioterapia de amplio espectro que debe ser iniciado rápidamente tras la obtención de hemocultivos [16, 17].

Afecta a personas con comorbilidades, tales como diabetes, obesidad, alcoholismo, drogadicción, enfermedad inmunológica, cirrosis, corticoterapia prolongada y enfermedad vascular periférica

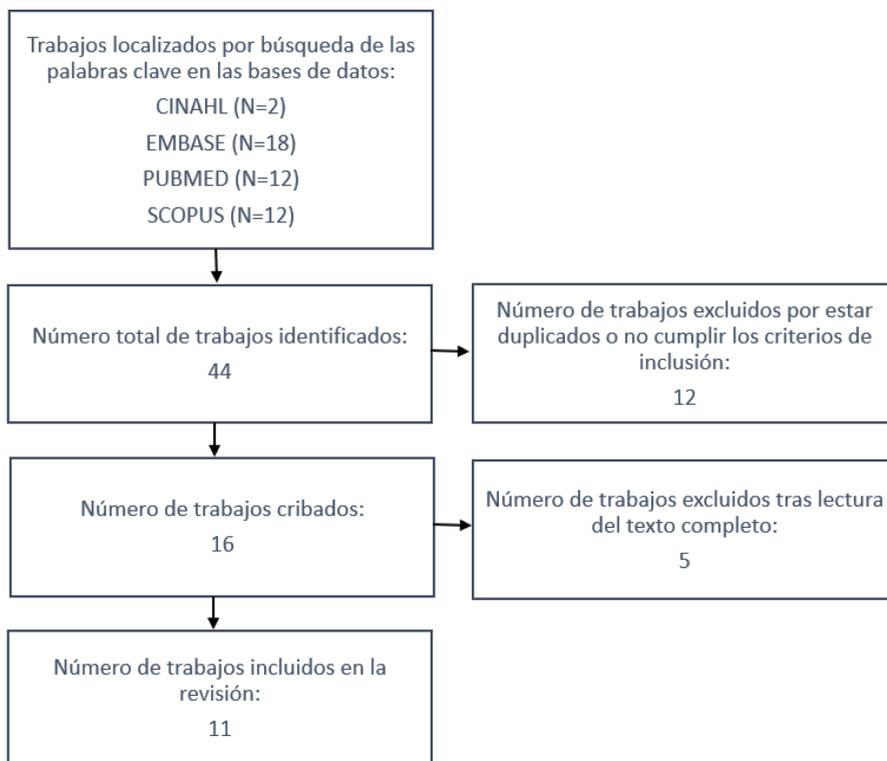


Figura 1. Diagrama de flujo PRISMA. Resumen de la búsqueda bibliográfica.

[9, 10, 18]. Entre ellas, la diabetes mellitus es la patología predisponente más común (18-72%) entre los pacientes que sufren una fascitis necrotizante cervical [13], encontrándose en nuestra revisión en un 38%. En ningún artículo de los revisados se recoge el consumo de alcohol y tabaco, a pesar de que se destacan como factores de riesgo para padecer la enfermedad [10, 13, 18–20]. En otras series no se describen antecedentes de neoplasias como posible etiología de esta enfermedad, sin embargo, en nuestra revisión aparece en 4 de nuestros 18 pacientes.

La fascitis necrotizante está asociada a la presencia de una respuesta inflamatoria sistémica que ocasiona cambios bioquímicos y hematológicos con la consecuente afectación sistémica que son los indicadores predictivos de la evolución

del cuadro [12]. Wong et al introducen la escala LRINEC en 2004 como una herramienta para detectar casos tempranos de pacientes con fascitis necrotizante frente a otras infecciones severas de tejidos blandos. Es fácil de determinar y se muestra como un parámetro robusto capaz de detectar incluso casos tempranos de fascitis necrotizante en la clínica [12]. Un valor mayor o igual a 6 en el LRINEC score incrementa la sospecha de fascitis necrotizante y se asocia con una probabilidad de un 50% de desarrollarla, presentando un alto valor predictivo negativo (99%) [21]. Como vemos, en nuestra revisión el valor superior a 6 aparece en el 90% de los pacientes de los que se ha recogido este parámetro.

El manejo de estos pacientes está dividido en 4 áreas: resucitación, cirugía, tratamiento médico

y reconstrucción/rehabilitación [11]. La alteración sistémica de estos pacientes suele requerir ingreso en UCI para resucitación, soporte hemodinámico, tratamiento antibiótico y de las complicaciones [2]. Además, hay que destacar que el 90% de los pacientes con infecciones graves por estreptococo precisan intubación y ventilación mecánica [19].

La clave para su manejo adecuado está basada en un diagnóstico y tratamiento temprano, que incluye la realización de un desbridamiento quirúrgico precoz y completo. En la cirugía realizaremos una cervicotomía y necrosectomía amplia, que ayuda a prevenir la progresión de la infección y minimizar el cuadro sistémico [20]. En otras regiones anatómicas se puede ser más agresivo, pero en el cuello se requiere un desbridamiento cuidadoso con la mayor preservación de regiones anatómicas posibles ya que alberga multitud de estructuras vitales en un área relativamente pequeña [22]. Se realizarán posteriores cirugías si son precisas [20]. Después de la primera intervención, el manejo de la herida y la nutrición son esenciales para la evolución del paciente.

La traqueotomía ha sido considerada el gold standard para el manejo de la vía aérea en las infecciones cervicales profundas debido a que enfrenta dificultades como la vía aérea gravemente comprometida, la anatomía distorsionada y la edematización cervical [13, 23, 24]. Sin embargo, la presencia de traqueotomía cercana a la zona de la cervicotomía puede complicar la situación del paciente por riesgo de aspiración de secreciones y por retraso de cicatrización de la herida quirúrgica por presencia de estas [10, 25]. Además, algunos autores como Chen et al, destaca que la traqueotomía también introduce un riesgo substancial de expansión de la infección al mediastino cuando la fascitis necrotizante afecta al espacio pretraqueal [24].

La terapia de cierre asistido por vacío (VAC) es un sistema no invasivo y dinámico que ayuda a promover la cicatrización mediante la aplicación de presión negativa en el lugar de la herida en

un ambiente húmedo y cerrado, favoreciendo la reducción del área de la herida, eliminando el exceso de fluidos y estimulando la angiogénesis [26]. Combina los beneficios del manejo cerrado y abierto de heridas, protege contra la contaminación y garantiza un medio ambiente óptimo para la reparación de tejidos [22]. Hay datos que indican que el tratamiento con VAC podría ser útil al reducir la carga bacteriana existente dentro de una herida infectada y las concentraciones de exotoxinas y endotoxinas potencialmente nocivas, simplemente eliminando de forma rápida el exudado del lecho de la herida [27]. A pesar del uso del VAC sigue siendo necesario el desbridamiento repetido de los tejidos desvitalizados en quirófano, por progresión de la necrosis de tejidos circundantes [22]. Sin embargo, autores como Govea et al [28], observan una diferencia significativa en el tiempo de cicatrización de infecciones profundas cervicales tratadas con VAC frente a aquellas tratadas con curas convencionales, con resultados estéticos más favorables.

Tang et al [31] describen en el año 2000 un procedimiento estandarizado para el uso de VAC en reconstrucciones de cabeza y cuello, que será el que se utilice en gran parte de los artículos revisados [11, 22, 29, 30]. Dicho procedimiento consiste en instilación de solución Dakin al 0.125% durante 20 minutos cada 8 horas, con posterior aplicación de presión negativa preferiblemente a 125mmHg durante 48 horas y posteriormente en ciclos de 2-5 minutos. Cada 48 horas se deberán cambiar los apósitos y realizar una reevaluación del estado de la herida de forma aséptica.

Algunos autores como Sukato et al aplican directamente el VAC sobre las principales estructuras vasculares cervicales sin efectos nocivos, pero colocando un apósito de petrolato entre la esponja del sistema de vacío y los vasos [25]. Debemos tener en cuenta que en algunos casos en los que los grandes vasos cervicales están expuestos tras la cervicotomía, la presión negativa se reduce a 100mmHg [11]. Dosluoglu et al, han comunicado el uso del tratamiento con VAC en pacientes con

injertos vasculares expuestos incluso en presencia de infección [32].

Una de las principales dificultades encontradas en los artículos revisados, para el uso de la VAC en las fascitis cervicales, es su proximidad a la vía aérea, ya que muchos casos cuentan con una traqueotomía, y se precisa su aislamiento completo del flujo de aire [7, 12]. Además, para colocar el parche adhesivo de la VAC, precisamos 5 cm desde el margen de la herida quirúrgica, del que habitualmente no disponemos en la región cervical [31].

Zhou et al [13] publicaron una serie de 46 casos con fascitis necrotizante cervical en los que compararon 28 pacientes tratados mediante el tradicional sistema irrigación y aplicación posterior de la VAC, frente a un novedoso sistema de doble tubo que permite la irrigación y drenaje al mismo tiempo. En este estudio se hallaron resultados beneficiosos del sistema del doble tubo sobre la VAC por mejor cuidado de la herida quirúrgica, de la piel circundante, reducción del número de reintervenciones para desbridamiento, sobre todo en pacientes con diabetes tipo II y acortamiento de la estancia hospitalaria. Debido a que su efecto clínico parece importante, podría tratarse de la futura línea de tratamiento de estos pacientes.

Debido a los grandes defectos anatómicos que pueden existir tras los desbridamientos repetidos, la necesidad de reconstrucción mediante colgajos e injertos suele ser común [11, 13], realizándose cuando el lecho tisular de la herida quirúrgica muestre un aspecto sano y una vez que se haya retirado el sistema de presión negativa [12, 30]. Los colgajos pediculados regionales reducen las complicaciones comparado con los colgajos libres de zona donante [16], sin embargo, en 4 de los pacientes estudiados se realiza con buen resultado un injerto de piel de espesor completo de zona donante. Posiblemente, la reconstrucción posterior dependa del tamaño del defecto y, su relación en cuanto a cercanía y al estado de los tejidos de la posible zona donante, para colgajos pediculados.

El oxígeno hiperbárico ha sido utilizado como tratamiento adyuvante en fascitis necrotizantes desde 1960, sin embargo, existe una ausencia de evidencia de su eficacia basada en estudios clínicos aleatorizados [33].

La fascitis necrotizante de cabeza y cuello puede tener complicaciones severas como son la mediastinitis, la trombosis venosa yugular, el shock séptico y el fallo multiorgánico [23]. Siendo la sepsis, seguida del fallo multiorgánico, la principal causa de muerte de los pacientes [7]. Novelli et al reportaron una tasa de mortalidad de la fascitis necrotizante cervical alrededor del 6 y el 13% [11], otros autores como Zhang et al sitúan esta tasa en el 12-20% [20], llegando incluso a tasas del 6 al 64% [13]. El pronóstico de supervivencia se basa en la severidad del cuadro, las comorbilidades del paciente, el diagnóstico temprano y el adecuado manejo médico y quirúrgico [11]. El mal pronóstico respecto a la misma patología en otras localizaciones se debe al compromiso de la vía aérea y a la afectación de los vasos supraaórticos [11].

La principal limitación de esta revisión sistemática es la falta de estudios sistemáticos adecuados que ayuden a comparar la evolución de este tipo de fascitis necrotizante con curas convencionales frente aquellos con uso de VAC, pudiéndose esto conseguir mediante un estudio multicéntrico. Además, se evidencia un posible sesgo de publicación en nuestra revisión, ya que los datos de supervivencia en una patología de elevada mortalidad, son del 100%.

## CONCLUSIONES

El cierre asistido por vacío (VAC) se ha utilizado en muchas áreas de la cirugía para la cicatrización de heridas complejas. Recientemente se ha considerado esta modalidad de tratamiento en el campo de la cirugía de cabeza y cuello.

La utilización de la VAC podría mejorar los porcentajes curación y de supervivencia de los pacientes con fascitis necrotizante cervical. Sin

embargo, es conocido que la mortalidad de la fascitis necrotizante es elevada y, probablemente, nuestros resultados podrían deberse a un sesgo de publicación.

A pesar de esto, el sistema VAC se ha mostrado como opción terapéutica eficaz y segura para el tratamiento de fascitis necrotizantes en otras regiones como el abdomen y el periné, por lo que consideramos que la realización de un estudio reglado multicéntrico sobre el uso de terapia de presión negativa VAC en fascitis necrotizante cervical podría aportar evidencia científica a favor de su uso.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Hua C, Urbina T, Bosc R, Parks T, Sriskandan S, de Prost N, et al. Necrotising soft-tissue infections. *Lancet Infect Dis.* 2023;23:81–94.
2. Hakkarainen TW, Kopari NM, Pham TN, Evans HL. Necrotizing soft tissue infections: Review and current concepts in treatment, systems of care, and outcomes. *Curr Probl Surg.* 2014;51(8):344–362.
3. Daszenies CS, Rahal ME, Arregui R V. Fascitis necrotizante de cuello. *Rev. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello.* 2004;64:247-251.
4. Martínez AY, McHenry CR, Meneses Rivadeneira L. Fascetis necrosante cervicofacial: Una infección severa que requiere tratamiento quirúrgico temprano. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2016;38(1):23–28.
5. Silberstein J, Grabowski J, Parsons JK. Use of a Vacuum-Assisted Device for Fournier's Gangrene: A New Paradigm. *Reviews in urology.* 2008;10(1):76-80.
6. Page MJ, McKenzie JE, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, et al. The PRISMA 2020 statement: An updated guideline for reporting systematic reviews. *Rev Esp Cardiol.* 2021;74(9):790–799.
7. Balcı MK, Çiğır E, Arslanoğlu S, İşlek A. Necrotizing fasciitis of the head and neck: our experience with vacuum-assisted closure therapy. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology.* 2018;275(10):2555–2562.
8. Del-Salvador H, Barros-Luco-Trudeau H, Barriá TE, Abarca AS, Cancino MC, et al. Fascetis necrotizante cervical: Consideraciones para el manejo precoz. *Rev. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello.* 2018;78(3):294-299.
9. Rodríguez R, Belizario M, Coca R, Bermúdez L, Reyes BR, Mena A. Fascitis necrotizante cervicofacial de origen odontogénico. *Acta Médica del Centro.* 2022;16(4):715-723.
10. Al-Zahid S, Izadi D, Day CJ, Wilson A, Stone C, Smith J. A novel airway management strategy for cervical necrotising fasciitis secondary to Bezold's abscess. *Ann R Coll Surg Engl.* 2018;101:23-25.
11. Novelli G, Catanzaro S, Canzi G, Sozzi G, Bozzetti A. Vacuum assisted closure therapy in the management of cervico-facial necrotizing fasciitis: a case report and review of the literatura. *Minerva Stomatol.* 2014;63:135-144.
12. Sandner A, Moritz S, Unverzagt S, Plontke SK, Metz D. Cervical necrotizing fasciitis - The value of the Laboratory Risk Indicator for Necrotizing Fasciitis Score as an indicative parameter. *J Oral Maxillofac Surg.* 2015;73(12):2319–2333.
13. Zhou EH, Liu SR, Zhu HM, Yi HL, Chen XP. Management and postoperative use of double-cannula irrigation–drainage tube in cervical necrotizing fasciitis: a Chinese single-institution experience of 46 patients. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2021;278(8):2975–2981.
14. Campana VL, Braun FM, Giuliani C. Cervical necrotizing fasciitis by dental abscess treated with negative pressure wound therapy: Case report. *Int J Surg Case Rep.* 2020;77:795–798.
15. O'Loughlin RE, Roberson A, Cieslak PR, Lynfield R, Gershman K, Craig A, et al. The epidemiology of invasive group A streptococcal infection and potential vaccine implications: United States, 2000-2004. *Clin Infect Dis.* 2007;45(7):853–862.
16. Lee JH, Foo FJ, Wong AWJ. Posterior cervical necrotising fasciitis: a multidisciplinary endeavour in surgery. *J Surg Case Rep.* 2023;3:1-3.
17. Stevens DL, Baddour LM. Necrotizing soft tissue infections. *UpToDate*, Shefner JM (Ed), UpToDate, Waltham, MA. 2023.
18. Ouazzani A, Dequanter D, Buttafuoco F, Raynal P, Lothaire. Cervical necrotizing fasciitis arising

- from dental abscess: a rare clinical observation. *Rev Med Brux.* 2009;30:99-105.
19. Parra P, Pérez S, Patiño ME, Castañeda S, García JA. Actualización en fascitis necrotizante. *Semin Fund Reumatol.* 2012;13:41-48.
  20. Zhang R, Zhang Y, Hou L, Yan C. Vacuum-assisted closure versus conventional dressing in necrotizing fasciitis: a systematic review and meta-analysis. *J Orthop Res.* 2023;18(85):1-9.
  21. Wong CH, Khin LW, Heng KS, Tan KC, Low CO. The LRINEC (Laboratory Risk Indicator for Necrotizing Fasciitis) score: A tool for distinguishing necrotizing fasciitis from other soft tissue infections. *Crit Care Med.* 2004;32(7):1535-1541.
  22. Oczenski W, Waldenberger F, Nehrer G, Kneifel W, Swoboda H, Schwarz S, et al. Vacuum-assisted closure for the treatment of cervical and mediastinal necrotizing fasciitis. *J Cardiothorac Vasc Anesth.* 2004;18(3):336-338.
  23. Muhammad JK, Almadani H, Al Hashemi BA, Liaqat M. The value of early intervention and a multidisciplinary approach in the management of necrotizing fasciitis of the neck and anterior mediastinum of odontogenic origin. *J Oral Maxillofac Surg.* 2015;73(5):918-927.
  24. Chen SJ, Ji N, Chen YX, Zhao SJ, Xiao JR, Lin XM, et al. Management and maintenance of the airway in cervical necrotising fasciitis: a retrospective analysis of 15 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2015;53(7):642-646.
  25. Sukato DC, Ferzli G, Thakkar P, Gordin E. Concurrent external and intraluminal vacuum-assisted closure in head and neck necrotizing fasciitis. *Laryngoscope.* 2017;127(6):1361-1364.
  26. Brox-Jiménez A, Díaz-Gómez D, Parra-Membrives P, Martínez-Baena D, Márquez-Muñoz M, Lorente-Herce J, et al. A vacuum assisted closure system in complex wounds: A retrospective study. *Cir Esp.* 2010;87(5):312-317.
  27. Vowden K, Téot L, Vowden P. Elección del tratamiento con presión negativa tópica en la práctica. La presión negativa tópica en el tratamiento de heridas. 2007;(7):10-14.
  28. Govea-Camacho LH, Astudillo-Carrera A, Hermosillo-Sandoval JM, Rodríguez-Reynoso S, González-Ojeda A, Fuentes-Orozco C. Impacto del manejo con cierre asistido al vacío en abscesos profundos de cuello. *Cir Cir.* 2016;84(4):275-281.
  29. Choi HJ. Cervical necrotizing fasciitis resulting in acupuncture and herbal injection for submental lipoplasty. *J Craniofac Surg.* 2014;25(5):507-509.
  30. Frankel JK, Rezaee RP, Harvey DJ, McBeath ER, Zender CA, Lavertu P. Use of negative pressure wound therapy with instillation in the management of cervical necrotizing fasciitis. *Head Neck.* 2015;37(11):157-160.
  31. Tang ATM, Ohri SK, Haw MP. Novel application of vacuum assisted closure technique to the treatment of sternotomy wound infection. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2000;17:482-484.
  32. Dosluoglu HH, Schimpf DK, Schultz R, Cherr GS. Preservation of infected and exposed vascular grafts using vacuum assisted closure without muscle flap coverage. *J Vasc Surg.* 2005;42(5):989-992.
  33. Levett D, Bennett MH, Millar I. Adjunctive hyperbaric oxygen for necrotizing fasciitis. *Cochrane Database Syst Rev.* 2025;1(1).

UTILIZACIÓN DE TERAPIA DE PRESIÓN NEGATIVA VAC<sup>®</sup> EN EL TRATAMIENTO LA FASCITIS NECROTIZANTE CERVICAL. REVISIÓN SISTEMÁTICA

RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ D, SANZ-SÁNCHEZ CI Y CAZORLA-RAMOS ÖE

ANEXO 1

Tabla 1. Uso de terapia de presión negativa en fascitis necrotizante cervical.

Autor	Año	País	N	Edad	Sexo	Comorbilidad	Origen	LRINEC	Germen	Nº Reintervención	Días VAC	Traqueotomía	Reconstrucción	Días UCI	Supervivencia
Oczenski W et al	2004	Austria	1	35	H	No	Periamigdalino	No consta	S. pyogenes	8	74	No consta	Injerto piel	84	Si
Queszani A et al	2009	Bélgica	1	23	H	No	Odontógeno	No consta	S. morbillorum	2	26	Si	Injerto piel	44	Si
Novelli G et al	2014	Italia	1	25	H	No	Odontógeno	6	Polimicrobiano	2	15	Si	No	9	Si
Choi HJ	2014	Corea	1	32	M	No	Glandula submandibular	No consta	Polimicrobiano	1	8	No	Colgajo cutáneo	No	Si
Sander A et al	2015	Alemania	1	74	M	HTA, obesidad, TYP	Odontógeno	9	Polimicrobiano	13	42	Si	Injerto piel	112	Si
Frankel JK et al	2015	Estados Unidos	1	53	H	No	Absceso cervical	No consta	Polimicrobiano	5	16	Si	Injerto piel	25	Si
Suato DC et al	2017	Estados Unidos	1	55	H	DM	Infección faríngea	No consta	No consta	5	14	Si	Colgajo cutáneo	90	Si
Al-Zahid S et al	2018	Reino Unido	1	49	H	HTA, DM, ERC	Mastoiditis	No consta	No consta	4	21	Si	Colgajo muscular local	90	Si
Balci MK et al	2018	Turquía	8	55±7,7	7H 1M	1 sin comorbilidades, 3DM, 3 neo laringe, 1 absceso neo glandula submandibular	2 infección dentaria, 4 traqueostoma, 1 absceso cervical, 1 amigdalitis	≥6 en 7 casos	3 streptococo, 5 polimicrobiano	2,25	No consta	2 Si	No consta	2 en UCI con media de 45 días	Si
Campaña VL et al	2020	Argentina	1	47	H	No	Odontógeno	No consta	S. Aureus	1	35	No	No	No	Si
Lee JH	2023	Singapur	1	62	H	Dm	Carbunco	8	No consta	1	6	No	Colgajo de trapico	42	Si

## ARTÍCULO DE REVISIÓN

# EFICACIA DE LA OXIGENOTERAPIA HIPERBÁRICA COMO ADYUVANTE EN LA PÉRDIDA AUDITIVA NEUROSENSORIAL REPENTINA. REVISIÓN SISTEMÁTICA

## *Efficacy of hyperbaric oxygen therapy as an adjuvant in sudden sensorineural hearing loss. Systematic review*

Jesús SÁNCHEZ-LOZANO <sup>1</sup>; Sandra MARTÍNEZ-PIZARRO <sup>2</sup>.

*1 Institución Policlínica Baza. Servicio de rehabilitación. Granada. España.*

*2 Institución Distrito Sanitario Granada-Nordeste. Servicio de Enfermería. Granada. España.*

*Correspondencia: mpsandrita@hotmail.com*

Fecha de recepción: 22 de febrero de 2024

Fecha de aceptación: 11 de junio de 2024

Fecha de publicación: 15 de junio de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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 pérdida auditiva neurosensorial súbita es un grave problema de salud social en las sociedades modernas. Aunque la tasa de mortalidad directa es muy baja, su influencia en la calidad de vida es enorme; es por eso que la implementación de las terapias más efectivas y seguras para el paciente es crucial para minimizar el riesgo de complicaciones y reacciones adversas al tratamiento. Los esteroides constituyen la base del tratamiento, sin embargo, recientemente se ha propuesto el uso de la oxigenoterapia hiperbárica en estos pacientes. Objetivo: Realizar una revisión sistemática sobre de eficacia de la oxigenoterapia hiperbárica como adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina. Método: Se seleccionaron ensayos clínicos aleatorizados controlados, realizados en humanos, llevados a cabo en los últimos diez años. La principal base de datos usada ha sido PubMed, a través de la plataforma National Library of Medicine. Resultados: La oxigenoterapia hiperbárica es eficaz como tratamiento adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina. La muestra total fue de 806 pacientes de ocho ensayos clínicos.

La frecuencia de aplicación la oxigenoterapia hiperbárica fue de una vez por día, durante 28 a 90 minutos por sesión, con un número total de sesiones entre 10 y 20. Conclusiones: La oxigenoterapia hiperbárica mejora los umbrales auditivos y conduce a una mejor recuperación auditiva que el tratamiento farmacológico estándar por sí solo en pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina.

PALABRAS CLAVE: oxigenoterapia hiperbárica; pérdida auditiva repentina; tratamiento; revisión.

SUMMARY: Introduction: Sudden sensorineural hearing loss is a serious social health problem in modern societies. Although the direct mortality rate is very low, its influence on the quality of life is enormous; That is why the implementation of the most effective and safe therapies for the patient is crucial to minimize the risk of complications and adverse reactions to the treatment. Steroids constitute the basis of treatment, however, the use of hyperbaric oxygen therapy in these patients has recently been proposed. Objective: To carry out a systematic review on the effectiveness of hyperbaric oxygen therapy as an adjuvant in sudden sensorineural hearing loss. Method: Randomized controlled clinical trials, carried out in humans, carried out in the last ten years were selected. The main database used was PubMed, through the National Library of Medicine platform. Results: Hyperbaric oxygen therapy is effective as an adjuvant treatment in sudden sensorineural hearing loss. The total sample was 806 patients from eight clinical trials. The frequency of application of hyperbaric oxygen therapy was once per day, for 28 to 90 minutes per session, with a total number of sessions between 10 and 20. Conclusions: Hyperbaric oxygen therapy improves hearing thresholds and leads to better hearing recovery than standard pharmacological treatment alone in patients with sudden sensorineural hearing loss.

KEYWORDS: Hyperbaric Oxygenation; Hearing Loss Sudden; Treatment; Revision.

## INTRODUCCIÓN

La pérdida auditiva neurosensorial súbita se presenta como un inicio abrupto de la pérdida auditiva. El 88% de estas presentaciones son idiopáticas. Se han postulado muchos mecanismos de lesión y etiología, pero comparten un resultado común: la hipoxia del órgano de Corti que conduce a la fusión de las células ciliadas y los cilios, hinchazón sináptica y dendrítica y despolarización sostenida [1, 2].

Esta patología es un grave problema de salud social en las sociedades modernas. Según los informes de la Organización Mundial de la Salud, la pérdida auditiva neurosensorial en la edad adulta es una de las principales enfermedades a nivel mundial, especialmente en los países de altos ingresos, y se prevé que pase del puesto 14 al 7 de la carga global de enfermedades para el año 2030 [3, 4].

La pérdida auditiva neurosensorial de aparición repentina puede clasificarse como primaria o

como secundaria. Las etiologías propuestas para la primaria incluyen infección viral, insuficiencia vascular, trastorno autoinmune y estrés, mientras que las causas de la secundaria incluyen neoplasias, accidentes cerebrovasculares e irradiación [5, 6].

Los pacientes con sospecha de pérdida auditiva deben someterse a pruebas de audición en el consultorio, como la prueba de voz susurrada o la audiometría. Luego, los pacientes deben someterse a un examen para detectar impactación de cerumen, exostosis y otras anomalías del conducto externo y la membrana timpánica, además de un examen neurológico. La pérdida auditiva neurosensorial repentina (pérdida de 30 dB o más en 72 horas) requiere una derivación inmediata al otorrinolaringólogo. No está indicada la evaluación de laboratorio a menos que se sospeche una enfermedad sistémica. La tomografía computarizada o la resonancia magnética están indicadas en pacientes con pérdida auditiva asimétrica o pérdida auditiva

neurosensorial repentina y cuando se sospecha daño de la cadena de huesecillos [7, 8, 9].

Aunque la tasa de mortalidad directa de esta enfermedad es muy baja, su influencia en la calidad de vida es enorme; es por eso que la implementación de las terapias más efectivas y seguras para el paciente es crucial para minimizar el riesgo de complicaciones y reacciones adversas al tratamiento. Los esteroides constituyen la base del tratamiento, sin embargo, recientemente se ha propuesto el uso de la oxigenoterapia hiperbárica en estos pacientes [10].

La oxigenoterapia hiperbárica, una técnica mediante la cual se proporciona oxígeno al 100% a una presión superior a 1 atmósfera absoluta (ATA) mediante inhalación mientras el paciente se encuentra dentro de una cámara presurizada de tratamiento. El oxígeno actúa como fármaco y la cámara hiperbárica como dispositivo dosificador. El efecto de la hiperoxia hiperbárica depende de la dosis y, por lo tanto, la profundidad y duración del tratamiento son importantes al considerar su uso. La fisiología subyacente es llevar plasma rico en oxígeno al tejido hipóxico, previniendo la lesión por reperfusión, fortaleciendo la capacidad de respuesta inmune y fomentando la deposición de nuevo colágeno, así como la formación de células endoteliales [11, 12, 13].

El objetivo de este trabajo es realizar una revisión sistemática sobre la eficacia de la oxigenoterapia hiperbárica como adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina.

## MATERIAL Y MÉTODO

Se ha realizado una revisión sistemática teniendo en cuenta las directrices PRISMA [14].

Criterios de elegibilidad. Los criterios de inclusión consistieron en seleccionar ensayos clínicos aleatorizados controlados, realizados en humanos, llevados a cabo en los últimos diez años, publicados en revistas nacionales e internacionales en los cuales se evaluó la eficacia de la oxigenoterapia hiperbárica como adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina.

Los criterios de exclusión consistieron en descartar estudios escritos en idiomas diferentes al español, inglés o francés y aquellos que fueron realizados en animales. Se escogieron artículos escritos o traducidos en los idiomas nombrados ya que son los idiomas que dominan los autores de este trabajo y de esta manera evitar sesgos de interpretación, como hubiera podido ser con idiomas asiáticos como por ejemplo chino o japonés. No obstante, cabe destacar que a su vez esta elección puede dar lugar a sesgos lingüísticos.

La estrategia de búsqueda se basó en la siguiente estrategia PICOS (*Patient, Intervention, Comparison, Outcome, Study*) [15]:

- P (paciente): pacientes pérdida auditiva neurosensorial repentina
- I (Intervención): oxigenoterapia hiperbárica.
- C (Intervención de comparación): farmacoterapia.
- O (Resultados): eficacia.
- S (Estudios): Ensayos clínicos controlados aleatorizados (ECA).

PICOS se ha usado para ayudar a construir la pregunta de investigación e identificar que pacientes (P) vamos a considerar en la revisión que son pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina, la intervención del grupo experimental (I) que se debe de ser la oxigenoterapia hiperbárica, la intervención de comparación (C) en este caso farmacoterapia; los resultados que queremos evaluar en esta revisión la eficacia y el tipo de estudios (S) que seleccionaremos que serán ensayos clínicos controlados aleatorizados (ECA).

La ecuación de búsqueda fue la siguiente: ((“Hyperbaric Oxygenation” [MESH] AND “Hearing Loss, Sudden”, [MESH]) OR ((“Hyperbaric Oxygenation” [tw] OR “Oxygen Inhalation Therapy” [tw]) AND (“Hearing Loss, Sudden” [tw] OR “Sudden sensorineural hearing loss” [tw])) AND Random\* [tw].

Fuentes de información. La principal base de datos usada ha sido PubMed, a través de la

plataforma National Library of Medicine (<https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/>).

También se consultaron las siguientes bases de datos:

- SciELO (<https://scielo.org/es/>).
- SPORTDiscus (<https://www.ebsco.com/es/productos/bases-de-datos/sportdiscus>).
- WoS (<https://www.recursoscientificos.fecyt.es/licencias/productos-contratados/wos>).
- Lilacs (<https://lilacs.bvsalud.org/es/>).
- Cochrane (<https://www.cochranelibrary.com/es/central>).
- PsycINFO (<https://www.ebsco.com/es/productos/bases-de-datos/apa-psycinfo>).
- CINAHL (<https://www.ebsco.com/es/productos/bases-de-datos/cinahl-complete>).

Hemos seleccionado estas bases de datos ya que se consideran los mejores referentes dentro del mundo sanitario.

La fecha de la última búsqueda fue el 20 de febrero del 2024.

#### Selección de los estudios

De todas las bases de datos internacionales en las que se ha realizado la búsqueda, se han recabado 93 ensayos clínicos. Posteriormente, tras rechazar los que estaban duplicados en varias bases de datos (con el programa Rayyan QCRI [16]), se llevó a cabo la lectura del título del estudio y del resumen del mismo de 44, donde, un total de 31 estudios cumplieron los criterios de inclusión. Seguidamente, se hizo una lectura del texto completo de dichos estudios, y se excluyeron 18 debido a que no cumplieron los criterios específicos de selección. Finalmente, un total de 8 ensayos clínicos aleatorizados formaron parte de esta revisión sistemática (Figura 1).

La revisión de títulos y resúmenes fue realizada por revisores independientes, no hubo desacuerdos entre los revisores.

## RESULTADOS

Se han examinado un total de ocho artículos. El periodo de publicación de los estudios comprendió

desde el año 2015 hasta el año 2023. Las revistas en las que fueron publicados fueron diversas:

“Medicina (Kaunas)”, “Audiol Neurootol”, “Ear Hear”, “Undersea Hyperb Med”, “Eur Arch Otorhinolaryngol”, “J R Army Med Corps”, y “Lin Chuang Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi”.

Respecto al país en el que fueron llevado a cabo los estudios; el 25% se realizaron en Italia, otro 25% en China, un 12,5% en Turquía, otro 12,5% en Taiwán, otro 12,5% en la República de Eslovenia y el 12,5% restante en Croacia.

En cuanto a las intervenciones realizadas en todos los ensayos clínicos se llevó a cabo la oxigenoterapia hiperbárica en el grupo experimental. Por otro lado, en el grupo control se comparó con la farmacoterapia sola en los estudios de Chi TH et al, Krajcovicova Z et al, Hu Y et al, Tong B et al, Cavaliere M et al y Ajduk J et al. En el ensayo clínico de Pezzoli M et al se comparó con la ausencia de tratamiento en el grupo control y en el de Sevil E et al se comparó la oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia intratimpánica frente a la oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia intravenosa.

La muestra total fue de 806 pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina. El ensayo clínico con mayor número de muestra fue el de Cavaliere M et al con 171 pacientes y el de menor muestra el de Pezzoli M et al con solamente 58 participantes.

La frecuencia de aplicación la oxigenoterapia hiperbárica fue en todos los estudios de una vez por día excepto en el ensayo de Hu Y et al en el cuál en uno de los grupos se aplicó dos veces al día. La duración de cada sesión osciló entre 28 y 90 minutos. Y el número total de sesiones estuvo comprendido entre 10 y 20. La aplicación del tratamiento fue segura y no se produjeron efectos adversos graves (Tabla 1, Anexo 1).

Seguidamente, se exponen los principales resultados de los ensayos organizados de forma cronológica:

En el ensayo clínico de Pezzoli M et al realizado en 2015 en Italia se evaluó la eficacia de la oxigenoterapia hiperbárica en pacientes con pérdida

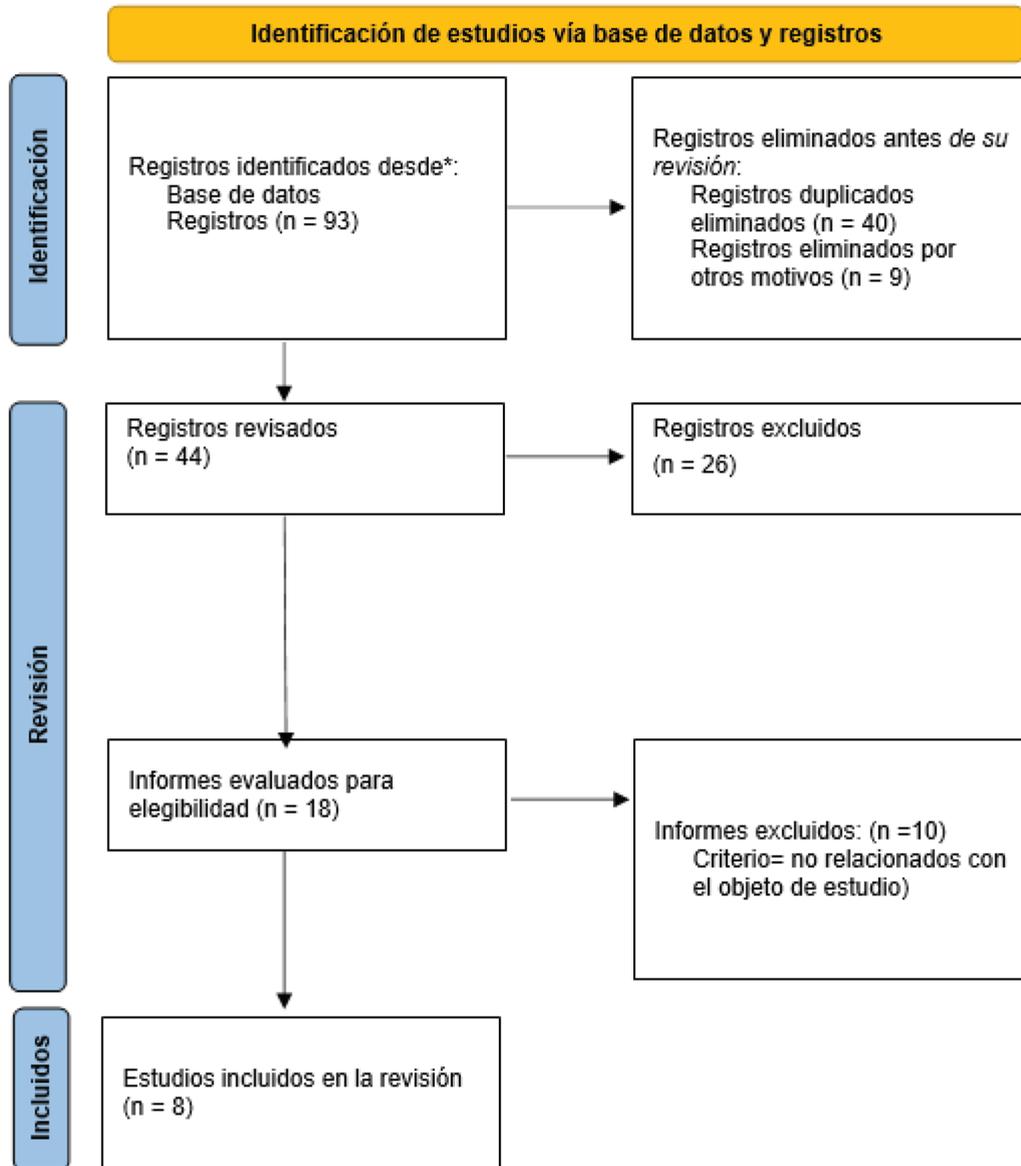


Figura 1. Diagrama de flujo del proceso de selección de artículos.

auditiva neurosensorial repentina. Se estudiaron 58 pacientes que no lograron recuperarse después del tratamiento primario con esteroides intravenosos. Se trataron 23 pacientes con oxigenoterapia hiperbárica (2,5 ATA durante 60 minutos, una vez al día

durante 15 días), mientras que el resto de pacientes no recibieron tratamiento y se usaron como grupo control. Los pacientes tratados con oxigenoterapia hiperbárica tuvieron una mejoría media de 15,6 dB (decibelios), siendo 1 de ellos completamente

curado, 5 con buena recuperación, 10 con recuperación regular y 7 sin cambios. Los pacientes que no fueron tratados tuvieron una mejoría media espontánea de 5,0 dB. La mejora media fue significativamente mejor en los pacientes tratados con oxigenoterapia hiperbárica en comparación con los controles ( $p=0,0133$ ). Los pacientes con peor audición tuvieron un mayor grado de mejoría independientemente de que fueran tratados o no en los primeros 10 días después del inicio de la pérdida auditiva o entre 11 y 30 días. En conclusión, la oxigenoterapia hiperbárica puede conducir a una mejora significativa de los umbrales auditivos de tonos puros en los que fracasó el tratamiento primario con corticosteroides y que se encuentran dentro de las 4 semanas posteriores al inicio de la sordera [17].

En el estudio de Sevil E et al realizado en 2016 en Turquía se evaluó la eficacia de la asociación de terapia con esteroides intratimpánicos y oxígeno hiperbárico en pacientes que presentan pérdida auditiva neurosensorial repentina, y se comparó este protocolo con otro que consiste en administración intravenosa administración de esteroides y terapia con oxigenoterapia hiperbárica. En este ensayo se incluyeron un total de 80 pacientes. El primer protocolo consistió en 20 sesiones de terapia oxigenoterapia hiperbárica junto con metilprednisolona intravenosa 1 mg/kg de peso corporal y una reducción gradual de 10 mg cada 3 días durante 10 días. El segundo protocolo consistió en oxigenoterapia hiperbárica durante 20 sesiones, junto con una inyección de dexametasona a dosis de 4 mg/mL, 0,5-0,7 ml una vez al día durante 7 días consecutivos, realizada 3 horas antes de la oxigenoterapia hiperbárica. En los pacientes leves a moderados, la ganancia auditiva media y la tasa de tratamiento exitoso fueron 19 (0-27) dB y 78,9%, respectivamente en el grupo de tratamiento de esteroides y oxigenoterapia hiperbárica, y 18 (3-44) dB y 70,5% en el grupo de terapia intravenosa y oxigenoterapia hiperbárica. En los pacientes graves, la ganancia auditiva media y la tasa de tratamiento exitoso fueron 33 (1-54) dB y 81,8 %, respectivamente en

el grupo de tratamiento de esteroides y oxigenoterapia hiperbárica y 33,5 (7-57) dB y 58,2 % en el grupo de tratamiento intravenoso y oxigenoterapia hiperbárica. Los resultados demostraron que la tasa de éxito de los pacientes con pérdida auditiva grave fue superior en el grupo sometido al tratamiento esteroides intratimpánicos y oxígeno hiperbárico; por el contrario, la terapia intravenosa con oxigenoterapia hiperbárica puede ser beneficiosa para los pacientes con pérdida auditiva profunda [18].

En la investigación de Chi TH et al realizada en 2018 en Taiwán se evaluó la eficacia de la combinación de oxígeno hiperbárico y tratamiento farmacológico en pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina. Los participantes fueron asignados aleatoriamente a uno de dos grupos. El grupo A fue tratado con tratamiento convencional más oxigenoterapia hiperbárica. El grupo B fue tratado únicamente con tratamiento convencional. Se inscribieron 60 participantes. La recuperación de la audición en los días 8 y 13 no mostró diferencias significativas entre los grupos de tratamiento. Sin embargo, la recuperación de la audición el día 180 fue significativamente mejor en aquellos que recibieron el tratamiento convencional más oxigenoterapia hiperbárica ( $P<0,05$ ). Además, no se observaron efectos secundarios significativos en ninguno de los grupos. La oxigenoterapia hiperbárica más el tratamiento convencional existente se asoció con un mejor resultado que el tratamiento convencional solo [19].

En el ensayo de Krajcovicova Z et al realizado en 2018 en la República de Eslovenia se evaluó la eficacia de la terapia con oxígeno hiperbárico utilizada como complemento al tratamiento médico de primera línea de la pérdida auditiva neurosensorial repentina. Se evaluaron 68 pacientes: 21 pacientes recibieron el protocolo de tratamiento estándar (grupo de control) y 47 personas fueron tratadas con una aplicación adicional de oxigenoterapia hiperbárica. Los resultados mostraron una mejora estadísticamente significativa en el umbral auditivo en todos los grupos de frecuencia para el grupo oxigenoterapia hiperbárica ( $P<0,001$ ),

mientras que en el grupo de control la ganancia auditiva media estadísticamente significativa se observó sólo para la zona de frecuencia de 1000 a 2000 Hertz ( $P=0,01$ ). Además, la tasa de ganancia auditiva en el grupo oxigenoterapia hiperbárica fue más del doble (61,7%) en comparación con el grupo de control (28,6%). La recuperación completa de la ganancia auditiva en el grupo de control se observó sólo en los dos primeros grupos de frecuencia (14,29%; 4,76%; 0,00%), mientras que en el grupo de oxigenoterapia hiperbárica se observó una recuperación completa en todos los grupos de frecuencia (19,15%; 21,13%; 6,38%) así como en todo el rango de frecuencia (6,38%). La eficiencia de ambos protocolos de tratamiento fue estadísticamente significativa ( $P<0,001$ ) en ambos grupos de pacientes, pero la suplementación de la terapia con oxigenoterapia hiperbárica demostró un aumento estadísticamente significativo en el efecto de la farmacoterapia ( $P<0,001$ ) en 11,5 decibeles (dB) hasta la ganancia auditiva final de 20 dB [20].

En la investigación de Hu Y et al realizada en 2020 en China se investigó el efecto terapéutico del oxígeno hiperbárico sobre la pérdida auditiva neurosensorial repentina. Se seleccionaron 107 pacientes, que se dividieron aleatoriamente en 3 grupos. El programa terapéutico en el grupo A (38 casos) consistió en tratamiento con oxígeno hiperbárico una vez al día durante 10 días consecutivos, luego 1 día sin tratamiento y en tratamiento durante otros 10 días consecutivos (20 tratamientos en total). 27 pacientes del grupo B fueron tratados con oxígeno hiperbárico dos veces al día durante un total de 10 días. 42 pacientes del grupo C no recibieron oxigenoterapia hiperbárica. Mientras tanto, todos los pacientes recibieron tratamiento convencional durante 14 días. La tasa efectiva general del grupo A fue del 78,9% y la mejora del umbral auditivo fue  $(27,2\pm 17,5)$  dB HL. En el grupo B, la tasa efectiva general fue del 81,5% y la mejora del valor umbral fue  $(26,9\pm 16,7)$  dB HL. La tasa efectiva general del grupo C fue del 61,9% y la mejora del valor umbral o fue  $(17,6\pm 18,5)$  dB HL. La tasa efectiva del grupo C fue significativamente

mayor que la del grupo A o B, mientras que no hubo diferencias significativas en la eficacia entre el grupo A y el grupo B. Por tanto, la eficacia del oxígeno hiperbárico combinado con la terapia farmacológica es mejor que la de terapia farmacológica sola. Los programas de oxígeno hiperbárico combinados con terapia farmacológica se pueden seleccionar de forma individual [21].

En el ensayo de Tong B et al realizado en 2021 en China se evaluó la eficacia de la combinación de oxígeno hiperbárico y tratamiento farmacológico en pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina. Se trata de un ensayo aleatorizado, que incluyó 136 casos que fueron divididos aleatoriamente en 2 grupos: el grupo de tratamiento farmacológico (P) y el grupo de oxigenoterapia hiperbárica más tratamiento farmacológico, que recibieron oxigenoterapia hiperbárica adicional durante 14 días además del tratamiento farmacológico. La tasa de éxito global del grupo de oxigenoterapia hiperbárica y farmacoterapia y del grupo farmacoterapia es del 60,6% (40/66) y del 42,9% (30/70), respectivamente ( $p < 0,05$ ). Además, los pacientes con pérdida auditiva inicial leve a moderada, con edades  $\leq 50$  años, que recibieron tratamiento en  $\leq 14$  días o sin mareos/vértigo en el grupo oxigenoterapia hiperbárica y farmacoterapia tuvieron una mayor tasa de éxito que el grupo P ( $p < 0,05$ ). La oxigenoterapia hiperbárica combinada con tratamientos farmacológicos conduce a una mejor recuperación auditiva que los tratamientos farmacológicos solos [22].

En el estudio de Cavaliere M et al realizado en 2022 en Italia se comparó el efecto de la oxigenoterapia hiperbárica, los esteroides orales y la combinación de ambas terapias para el tratamiento de la pérdida auditiva neurosensorial repentina. Este estudio aleatorizado analizó 171 pacientes. Los pacientes de los grupos de oxigenoterapia hiperbárica y esteroides y los del grupo de oxigenoterapia hiperbárica mejoraron su función auditiva ( $p < 0,05$ ). La oxigenoterapia hiperbárica fue la mejor opción de tratamiento cuando se inició a los 7 días del inicio de la pérdida auditiva, mientras

que oxigenoterapia hiperbárica y esteroides en caso de tratamiento tardío. La pérdida auditiva neurosensorial repentina profunda se recuperó por igual con oxigenoterapia hiperbárica y oxigenoterapia hiperbárica con esteroides ( $p < 0,05$ ). La pérdida auditiva neurosensorial repentina ascendente obtuvo mejores resultados auditivos mediante oxigenoterapia hiperbárica ( $p < 0,05$ ). La pérdida auditiva neurosensorial repentina descendente y plana tuvo la mayor mejora con oxigenoterapia hiperbárica con esteroides ( $p < 0,05$ ). La combinación de oxigenoterapia hiperbárica con esteroides es un tratamiento válido para la pérdida auditiva neurosensorial repentina tanto en caso de tratamiento temprano como tardío. La combinación de oxigenoterapia hiperbárica con esteroides fue la opción con mejores resultados en caso de que el tratamiento comenzara tras 14 días desde el inicio de los síntomas [23].

En el estudio de Ajduk J et al realizado en 2023 en Croacia se compararon los resultados de la terapia farmacológica con corticosteroides y oxigenoterapia hiperbárica en pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina. 126 pacientes fueron inscritos y aleatorizados para recibir farmacoterapia con oxigenoterapia hiperbárica o solamente farmacoterapia y además hubo un grupo que no recibió tratamiento. La terapia farmacológica y oxigenoterapia hiperbárica se asoció con una recuperación auditiva estadísticamente significativa en todas las frecuencias en comparación con los esteroides sistémicos solos. Los resultados muestran una mejora auditiva promedio de 13,6 dB en frecuencias generales (250 a 8000 Hz) después de la farmacoterapia y 7,4 dB en la oxigenoterapia hiperbárica en comparación con el grupo de control. La presencia de una mejora auditiva significativa se correlacionó positivamente con la edad, la farmacoterapia y la terapia oxigenoterapia hiperbárica. La combinación de farmacoterapia y oxigenoterapia hiperbárica muestra resultados auditivos superiores en comparación con la farmacoterapia sola [24].

## DISCUSIÓN

Los resultados obtenidos en los estudios de los últimos diez años avalan la utilidad y eficacia de la oxigenoterapia hiperbárica como adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina. El beneficio de la oxigenoterapia hiperbárica es más evidente en pacientes con pérdida auditiva severa a profunda, según lo observado por Eryigit B et al en 2018 y Rhee TM et al en 2018.

Nuestros resultados coinciden con la revisión sistemática y metaanálisis realizado por Joshua TG et al en 2022 en Canadá. En este estudio también se evaluó la evidencia de la asociación de la oxigenoterapia hiperbárica en la pérdida auditiva neurosensorial repentina. En esta revisión se estudiaron tres ensayos clínicos con 88 participantes mientras que en la nuestra fueron 8 ensayos clínicos con 806 participantes. No obstante, se obtuvieron los mismos resultados y es que la oxigenoterapia hiperbárica como parte de un tratamiento combinado se asoció significativamente con mejores resultados auditivos en comparación con el tratamiento farmacológico solo [25].

Otro estudio similar fue realizado por Rhee TM et al en 2018 en Corea. En él se realizó una revisión sistemática con metaanálisis para comparar la oxigenoterapia hiperbárica con tratamiento farmacológico y el tratamiento farmacológico solo para pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina. Los resultados fueron coincidentes con los nuestros ya que se observó que la recuperación auditiva fue significativamente mayor en el grupo de oxigenoterapia hiperbárica con tratamiento farmacológico que en el grupo de tratamiento farmacológico solo. La ganancia auditiva absoluta también fue significativamente mayor en el grupo experimental que en el grupo de farmacología sola. Pero además estos autores matizaron que el beneficio de la oxigenoterapia hiperbárica fue mayor en grupos con pérdida auditiva de severa a profunda al inicio del estudio, como tratamiento de rescate y con una duración total de al menos 1.200 minutos [26].

En 2018 Eryigit B et al llevaron a cabo una revisión sistemática en Países Bajos similar en la que se evaluó la efectividad del oxígeno hiperbárico en el tratamiento de pacientes con pérdida auditiva neurosensorial súbita idiopática. Los resultados también en este caso fueron coincidentes con los nuestros ya que, el promedio de la ganancia auditiva media en cinco frecuencias contiguas fue significativamente mayor en el grupo de terapia con oxígeno hiperbárico y esteroides sistémicos en pacientes con discapacidad auditiva grave o profunda. Estos autores también registraron un efecto significativo del tratamiento ( $p=0,005$ ) de la oxigenoterapia hiperbárica y esteroides en pacientes con una pérdida auditiva inicial de  $\geq 81$  dB [27].

Una de las principales limitaciones de nuestra revisión sistemática ha sido la heterogeneidad en el protocolo del tratamiento. Por ello, en las investigaciones futuras sería necesario realizar una mayor cantidad de estudios para determinar el protocolo de aplicación y duración total de la oxigenoterapia hiperbárica más óptima.

En general nuestros resultados amplían y fortalecen la evidencia existente en este campo. Pero sin embargo es necesario seguir explorando las terapias sinérgicas que se pueden usar junto con la oxigenoterapia hiperbárica para potenciar su efecto. Para ello será necesario un incremento de futuras investigaciones aumentando el número de ensayos clínicos aleatorizados y controlados con un mayor número de muestra, que establezcan un protocolo óptimo de aplicación y duración de la oxigenoterapia hiperbárica, así como la exploración de terapias sinérgicas.

En definitiva, aunque la heterogeneidad de los regímenes de tratamiento entre los estudios limita la capacidad de esta revisión sistemática para proporcionar recomendaciones de tratamiento específicas, la tendencia general hacia la mejora de la pérdida auditiva neurosensorial repentina fomenta una mayor exploración de esta modalidad como herramienta terapéutica.

## CONCLUSIONES

La oxigenoterapia hiperbárica es eficaz como tratamiento adyuvante en la pérdida auditiva neurosensorial repentina. Esta terapia mejora los umbrales auditivos y conduce a una mejor recuperación auditiva que el tratamiento farmacológico estándar por sí solo.

La importancia clínica de estos hallazgos es mayúscula ya que podría impactar en la práctica clínica y en el manejo de pacientes con pérdida auditiva neurosensorial repentina, mejorando la calidad de vida de estos pacientes y ofreciéndoles los mejores tratamientos basados en la última evidencia científica disponible.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Plontke SK. Diagnostics and Therapy of Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss. *Laryngorhinootologie*. 2017;96(01):S103-S122. <https://doi.org/10.1055/s-0042-122385>.
2. Tripathi P, Deshmukh P. Sudden Sensorineural Hearing Loss: A Review. *Cureus*. 2022;14(9):e29458. <https://doi.org/10.7759/cureus.29458>.
3. Young YH. Contemporary review of the causes and differential diagnosis of sudden sensorineural hearing loss. *Int J Audiol*. 2020;59(4):243-253. <https://doi.org/10.1080/14992027.2019.1689432>.
4. Chaushu H, Ungar OJ, Abu Eta R, Handzel O, Muhanna N, Oron Y. Spontaneous recovery rate of idiopathic sudden sensorineural hearing loss: A systematic review and meta-analysis. *Clin Otolaryngol*. 2023;48(3):395-402. <https://doi.org/10.1111/coa.14036>.
5. Prince ADP, Stucken EZ. Sudden Sensorineural Hearing Loss: A Diagnostic and Therapeutic Emergency. *J Am Board Fam Med*. 2021;34(1):216-223. <https://doi.org/10.3122/jabfm.2021.01.200199>.
6. Michels TC, Duffy MT, Rogers DJ. Hearing Loss in Adults: Differential Diagnosis and Treatment. *Am Fam Physician*. 2019;100(2):98-108.
7. Marx M, Younes E, Chandrasekhar SS, Ito J, Plontke S, O'Leary S, Sterkers O. International consensus

- (ICON) on treatment of sudden sensorineural hearing loss. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2018;135(1S):S23-S28. <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2017.12.011>.
8. Lawrence R, Thevasagayam R. Controversies in the management of sudden sensorineural hearing loss: an evidence-based review. *Clin Otolaryngol.* 2015;40(3):176-82. <https://doi.org/10.1111/coa.12363>.
  9. LeGros TL, Murphy-Lavoie H. HBO2 for sudden sensorineural hearing loss. *Undersea Hyperb Med.* 2020;47(2):271-295. <https://doi.org/10.22462/04.06.2020.14>.
  10. Olex-Zarychta D. Hyperbaric Oxygenation as Adjunctive Therapy in the Treatment of Sudden Sensorineural Hearing Loss. *Int J Mol Sci.* 2020;21(22):8588. <https://doi.org/10.3390/ijms21228588>.
  11. Fu Q, Duan R, Sun Y, Li Q. Hyperbaric oxygen therapy for healthy aging: From mechanisms to therapeutics. *Redox Biol.* 2022;53:102352. <https://doi.org/10.1016/j.redox.2022.102352>.
  12. Chen L, Wang Y, Zhou H, Liang Y, Zhu F, Zhou G. The new insights of hyperbaric oxygen therapy: focus on inflammatory bowel disease. *Precis Clin Med.* 2024;7(1):pbae001. <https://doi.org/10.1093/pccmedi/pbae001>.
  13. Sethuraman KN, Smolin R, Henry S. Is There a Place for Hyperbaric Oxygen Therapy? *Adv Surg.* 2022;56(1):169-204. <https://doi.org/10.1016/j.yasu.2022.02.011>.
  14. Page MJ, McKenzie JE, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, et al. The PRISMA 2020 statement: an updated guideline for reporting systematic reviews. *J Clin Epidemiol.* 2021;19:26. <https://doi.org/10.1590/s0104-11692007000300023>.
  15. Mamédio C, Andruccioli M, Cuce M. The PICO strategy for the research question construction and evidence research. *Rev Latino-Am Enfermagem* 2007;15:508-11. <https://doi.org/10.1002/14651858.ED000142>.
  16. Ouzzani M, Hammady H, Fedorowicz Z, Elmagarmid A. Rayyan—a web and mobile app for systematic reviews. *Syst Rev.* 2016;5(1):210. <https://doi.org/10.1186/s13643-016-0384-4>.
  17. Pezzoli M, Magnano M, Maffi L, Pezzoli L, Marcato P, Orione M, et al. Hyperbaric oxygen therapy as salvage treatment for sudden sensorineural hearing loss: a prospective controlled study. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2015;272(7):1659-66. <https://doi.org/10.1007/s00405-014-2948-z>.
  18. Sevil E, Bercin S, Muderris T, Gul F, Kiris M. Comparison of two different steroid treatments with hyperbaric oxygen for idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2016;273(9):2419-26. <https://doi.org/10.1007/s00405-015-3791-6>.
  19. Chi TH, Chiang MC, Chen RF, Yuan CH. Does the addition of hyperbaric oxygen therapy to conventional treatment modalities influence the outcome of soldiers with idiopathic sudden sensorineural hearing loss? *J R Army Med Corps.* 2018;164(2):69-71. <https://doi.org/10.1136/jramc-2017-000872>.
  20. Krajcovicova Z, Melus V, Zigo R, Matisáková I, Vecera J, Kaslíková K. Efficacy of hyperbaric oxygen therapy as a supplementary therapy of sudden sensorineural hearing loss in the Slovak Republic. *Undersea Hyperb Med.* 2018;45(3):363-370.
  21. Hu Y, Chen H, Xiong J, Sun W. The efficacy of hyperbaric oxygen in the treatment of sudden sensorineural hearing loss. *Lin Chuang Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi.* 2020;34(6):521-523;527. <https://doi.org/10.13201/j.issn.2096-7993.2020.06.010>.
  22. Tong B, Niu K, Ku W, Xie W, Dai Q, Hellström S, et al. Comparison of Therapeutic Results with/without Additional Hyperbaric Oxygen Therapy in Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss: A Randomized Prospective Study. *Audiol Neurootol.* 2021;26(1):11-16. <https://doi.org/10.1159/000507911>.
  23. Cavaliere M, De Luca P, Scarpa A, Strzalkowski AM, Ralli M, Calvanese M, et al. Combination of Hyperbaric Oxygen Therapy and Oral Steroids for the Treatment of Sudden Sensorineural Hearing Loss: Early or Late? *Medicina (Kaunas).* 2022;58(10):1421. <https://doi.org/10.3390/medicina58101421>.
  24. Ajduk J, Peček M, Kelava I, Žaja R, Ries M, Košec A. Comparison of Intratympanic Steroid and

- Hyperbaric Oxygen Salvage Therapy Hearing Outcomes in Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss: A Retrospective Study. *Ear Hear.* 2023;44(4):894-899. <https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001338>.
25. Joshua TG, Ayub A, Wijesinghe P, Nunez DA. Hyperbaric Oxygen Therapy for Patients With Sudden Sensorineural Hearing Loss: A Systematic Review and Meta-analysis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2022;148(1):5-11. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2021.2685>.
26. Rhee TM, Hwang D, Lee JS, Park J, Lee JM. Addition of Hyperbaric Oxygen Therapy vs Medical Therapy Alone for Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss: A Systematic Review and Meta-analysis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018;144(12):1153-1161. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2018.2133>.
27. Eryigit B, Ziylan F, Yaz F, Thomeer HGXM. The effectiveness of hyperbaric oxygen in patients with idiopathic sudden sensorineural hearing loss: a systematic review. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2018;275(12):2893-2904. <https://doi.org/10.1007/s00405-018-5162-6>.

ANEXO 1

Tabla 1. características de los estudios y de la intervención.

Autor	Año	País	Intervención	Muestra	Frecuencia	Segura	Sesiones	Resultados
Pezzoli M [17]	2015	Italia	Oxigenoterapia hiperbárica versus ausencia de tratamiento.	58	60 minutos 1 vez al día durante 15 días.	Si	15	La oxigenoterapia hiperbárica mejora los umbrales auditivos de tonos puros en los que fracasó el tratamiento con corticosteroides y que se encuentran dentro de las 4 semanas posteriores.
Sevil E [18]	2016	Turquía	Oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia intratimpánica versus oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia intravenosa.	80	28 minutos 1 vez al día durante 20 días.	Si	20	El éxito fue superior en pacientes con pérdida auditiva grave en el grupo de esteroides intratimpánicos y oxígeno hiperbárico.
Chi TH [19]	2018	Taiwán	Oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia versus farmacoterapia sola.	60	30 minutos 1 vez al día durante 15 días	Si	15	La oxigenoterapia hiperbárica más el tratamiento convencional se asocia con un mejor resultado que el tratamiento convencional solo.
Krajcovicova Z [20]	2018	Eslovenia	Oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia versus farmacoterapia sola.	68	90 minutos 1 vez al día durante 10 días	Si	10	La eficacia del oxígeno hiperbárico combinado con la farmacología para mejorar el umbral auditivo es superior que la de terapia farmacológica sola.
Hu Y [21]	2020	China	Oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia versus farmacoterapia sola.	107	60 minutos 1 vez al día durante 20 días versus 2 veces al día 10 días.	Si	20	La eficacia del oxígeno hiperbárico combinado con la farmacología es mejor que la de terapia farmacologica sola.
Tong B [22]	2021	China	Oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia versus farmacoterapia sola.	136	60 minutos 1 vez al día durante 14 días.	Si	14	La oxigenoterapia hiperbárica combinada con tratamientos farmacológicos conduce a una mejor recuperación auditiva que la farmacoterapia sola.
Cavaliere M [23]	2022	Italia	Oxigenoterapia hiperbárica versus farmacoterapia sola versus ambas combinadas	171	90 minutos 1 vez al día durante 15 días	Si	15	La oxigenoterapia hiperbárica con esteroides es eficaz para la pérdida auditiva neurosensorial repentina tanto en caso de tratamiento temprano como tardío.
Ajduk J [24]	2023	Croacia	Oxigenoterapia hiperbárica con farmacoterapia versus farmacoterapia sola.	126	90 minutos 1 vez al día durante 15 días	Si	15	La combinación de farmacoterapia y oxigenoterapia hiperbárica muestra resultados auditivos superiores en comparación con la farmacoterapia sola.

## TRATAMIENTO QUIRÚRGICO DE LA APNEA OBSTRUCTIVA DEL SUEÑO: ADENOAMIGDALECTOMÍA EN EL ADULTO

### *Surgical treatment of obstructive sleep apnea: adenotonsillectomy in adults*

Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA <sup>1</sup>; Marina CARRASCO-LLATAS <sup>1</sup>; Peter BAPTISTA-JARDÍN <sup>2</sup>;  
Guillermo PLAZA-MAYOR <sup>3</sup>; Alfonso MARCO-GARRIDO <sup>4</sup>; Carlos O'CONNOR-REINA <sup>5</sup>

<sup>1</sup>Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Doctor Peset, Valencia, España.

<sup>2</sup>Servicio de Otorrinolaringología de la Clínica Universidad de Navarra, Pamplona, Navarra, España.

<sup>3</sup>Servicio de Otorrinolaringología. Hospital Universitario de Fuenlabrada y Hospital Universitario La Zarzuela. Universidad Rey Juan Carlos. Madrid. España.

<sup>4</sup>Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Reina Sofía, Murcia, España.

<sup>5</sup>Servicio de Otorrinolaringología Hospitales Quironsalud Marbella y Campo de Gibraltar, España.

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

Fecha de recepción: 20 de noviembre de 2022

Fecha de aceptación: 31 de enero de 2023

Fecha de publicación: 14 de julio de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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: La apnea obstructiva del sueño (AOS) es una enfermedad de etiología multifactorial que conduce al colapso de la vía aérea superior. La hipertrofia de los tejidos linfoides contribuye a la colapsabilidad de la vía aérea. Revisión conceptual de la adenoamigdalectomía en el paciente adulto con AOS. Síntesis: En presencia de hipertrofia amigdalal grado  $\geq 3$ , la amigdalectomía es el tratamiento de primera línea. Las distintas técnicas disponibles de adenoamigdalectomía son adecuadas para el tratamiento del paciente con AOS. Se deben respetar los músculos palatogloso y palatofaríngeo. Además de la curación y del éxito quirúrgico, la amigdalectomía ofrece beneficios como la disminución de presión necesaria aplicada al CPAP y consiguientemente un aumento de su tolerancia. Conclusiones: La exéresis de los tejidos linfoides hipertróficos en el paciente adulto con AOS resulta imprescindible. Esta cirugía elimina elementos obstructivos de la vía aérea superior favoreciendo su permeabilidad y estabilidad.

**PALABRAS CLAVE:** apnea obstructiva del sueño; AOS; amigdalectomía; hipertrofia amigdalor; adenoidectomía; amigdalotomía.

**SUMMARY:** Introduction and objective: Obstructive sleep apnea (OSA) is a multifactorial etiology disease that leads to the collapse of the upper airway. Hypertrophy of lymphoid tissues contributes to airway collapsibility. Conceptual review of adenotonsillectomy in the adult patient with OSA. Synthesis: In the presence of grade  $\geq 3$  tonsillar hypertrophy, tonsillectomy is the first-line treatment. The different available adenotonsillectomy techniques are suitable for treating patients with OSA. The integrity of the palatoglossus and palatopharyngeus muscles must be respected. In addition to healing and surgical success, tonsillectomy offers benefits such as reducing necessary pressure applied to CPAP and consequently increasing its tolerance. Conclusions: The removal of hypertrophic lymphoid tissues in adult patients with OSA is essential. This surgery eliminates obstructive elements from the upper airway, favoring its patency and stability.

**KEYWORDS:** obstructive sleep apnea; OSA; tonsillectomy; tonsil hypertrophy; adenoidectomy; tonsillotomy.

## INTRODUCCIÓN

La apnea obstructiva del sueño (AOS) es una enfermedad de etiología multifactorial que conduce al colapso de la vía aérea superior. Existen múltiples factores relacionados con el desarrollo de la AOS; como las alteraciones del control ventilatorio, los defectos en la respuesta muscular y las alteraciones del umbral del despertar. Entre estos factores que afectan a las distintas esferas de la fisiopatología

de la AOS, se encuentran también los factores de carácter anatómico (Figura 1).

En los pacientes que padecen AOS, es imprescindible realizar una exhaustiva exploración física cervico-facial y de la vía aérea superior con el fin de identificar aquellos defectos anatómicos relacionados con la enfermedad.

El grado de hipertrofia amigdalor se ha relacionado con la severidad de la enfermedad tanto en niños como en adultos con AOS [1, 2]. Sin

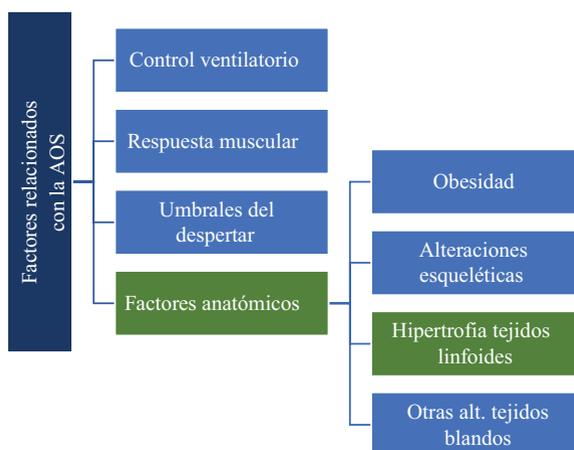


Figura 1. Factores relacionados con la apnea obstructiva del sueño.

embargo, esta hipertrofia no conlleva directamente a la enfermedad, ya que existe también en pacientes sanos [3].

En los niños, debido a la gran prevalencia de hipertrofia adenoamigdalara en esta población, la adenoamigdalectomía se considera el tratamiento de primera elección [4]. Sin embargo, en el caso del adulto, la hipertrofia de los tejidos linfoides no es tan frecuente y suele presentarse junto con otros defectos. Su indicación quirúrgica debe realizarse tras una adecuada selección de los pacientes candidatos, tanto para realizar esta cirugía en exclusiva como para realizarla en combinación con otras técnicas que aborden el paladar o el espacio retrolingual.

Durante el sueño, las VAS puede cerrarse a distintos niveles, el nivel de cierre más frecuente es la orofaringe. Las amígdalas palatinas contribuyen en gran medida en la restricción de espacio que ocurre a este nivel.

## ADENOIDECTOMÍA

A pesar de que la hipertrofia adenoidea no es causa habitual de AOS en el adulto, cualquier obstrucción en la nasofaringe debe ser tratada para reinstaurar la respiración nasal.

La técnica clásica de adenoidectomía se basa en el curetaje frío a través de la cavidad oral utilizando la palpación transoral de las adenoides o la imagen de la nasofaringe reflejada en un espejillo laríngeo como guía del procedimiento. La técnica convencional de adenoidectomía ha mostrado presencia de tejido adenoideo residual en aproximadamente el 39% de los intervenidos, especialmente en el área coanal y tubárica [5]. Las adenoides o amígdala nasofaríngea es un tejido linfoide no capsulado que descansa sobre la mucosa y presenta en profundidad la transición de las fascias faringo-basilar y bucofaríngea. Debido a la ausencia de cápsula, a su localización en una cavidad y a las relaciones con las estructuras adyacentes, la extirpación de las adenoides en su totalidad es difícil de conseguir.

Posteriormente, se han descrito otras técnicas con instrumentos como el microdebridador o el terminal de coablación, que junto con la visión endoscópica a través de la cavidad oral o nasal permiten mayor control del tejido linfático residual [6]. Estas técnicas se desarrollaron con el objetivo de poder visualizar y alcanzar adecuadamente porciones de las adenoides que con la técnica tradicional quedarían sin tratar. Por ello, ciertos autores insisten en que no es la técnica seleccionada en sí misma, sino el tejido extirpado, lo que evita la presencia de patología residual. Para ello, se han propuesto los siguientes límites anatómicos; superiormente el periostio sobre el cuerpo del esfenoides, posteriormente la fascia faringobasilar, lateralmente las fosas de Rosenmüller y los torus tubáricos, e inferiormente la cresta de Passavant [7].

En función de la experiencia del cirujano, se debe practicar la técnica con la que se consiga reseca de manera segura el mayor tejido patológico posible. Estas técnicas se presuponen más seguras ya que tienen la ventaja de la visualización directa y el uso de un instrumento de hemostasia durante el procedimiento [7-9]. En pacientes ya intervenidos o en adultos parece ser recomendable utilizar alguna de estas técnicas más avanzadas.

## AMIGDALECTOMÍA

### Indicación y técnicas

Recientemente, el algoritmo de tratamiento del nuevo documento internacional de consenso sobre la AOS basado en la medicina personalizada y de precisión, indica como primera opción terapéutica la amigdalectomía en los casos de hipertrofia amigdalara grado  $\geq 3$  por delante de la terapia con CPAP (terapia respiratoria con presión continua) [10, 11] (Figuras 2 y 3).

Respecto a la técnica, existen múltiples instrumentos y tecnologías disponibles para realizarla; disección fría, disección con bisturí de punta de tungsteno a baja potencia, coablación, uso de coagulación monopolar, bipolar, etc. Pese a que

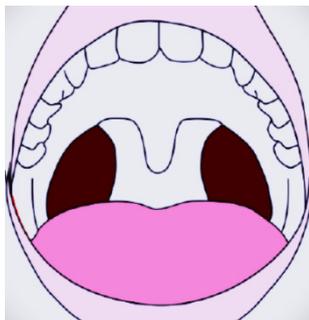


Figura 2. Hipertrofia amigdalina grado 3 según clasificación de Friedman [11].

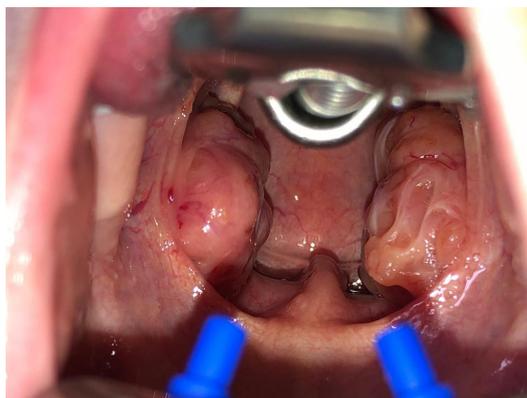


Figura 3. Hipertrofia amigdalina grado 3 según clasificación de Friedman en posición quirúrgica.

existen múltiples estudios comparativos, todas las mencionadas son adecuadas. La superioridad de un método respecto al resto varía en función del parámetro que se evalúe; tasa de hemorragia postquirúrgica, dolor y tiempo de recuperación, duración de la intervención, coste-efectividad, etc [12,13]. Una revisión de la Cochrane concluye que la evidencia actual no puede demostrar la superioridad de las técnicas más novedosas de amigdalectomía frente a las clásicas [14].

La amigdalectomía se puede realizar como cirugía única o como parte de una cirugía combinada de paladar o multinivel.

Si bien no es necesario explicar la técnica de la amigdalectomía, sí es importante resaltar que, en

el contexto de AOS, se deben respetar los músculos palatogloso y palatofaríngeo debido a que las técnicas modernas de faringoplastia precisan de la integridad de estos músculos para su ejecución.

#### Resultados de la amigdalectomía

El mayor trabajo publicado sobre amigdalectomía en exclusiva es el meta-análisis de Camacho y cols. Concluyen que en los pacientes con amígdalas grado 2-4, esta cirugía redujo de forma significativa el índice de apnea-hipopnea en un 62,5% y la escala de somnolencia de Epworth en 5,5 puntos (15). El éxito quirúrgico según el criterio clásico de Sher [16] fue del 85,2% [15].

Múltiples trabajos han demostrado que la hipertrofia amigdalina está relacionada con el éxito quirúrgico, con la curación y/o mejora de la AOS, bien cuando se realiza la amigdalectomía en exclusiva o cuando se realiza en combinación de otras cirugías [17, 18]. De hecho, el volumen amigdalino ha demostrado estar relacionado con el éxito quirúrgico de las faringoplastias [19]. Los modelos estadísticos estiman en  $\geq 6,5\text{cm}^3$  el volumen amigdalino predictor de éxito quirúrgico [20]. Estos conceptos obligan a tener que ofrecer los resultados de la cirugía de vía aérea superior controlados o ajustados por el grado amigdalino.

Otro beneficio de la amigdalectomía en casos de hipertrofia es la reducción de la presión necesaria en la terapia respiratoria. La CPAP presenta un grave problema de adherencia, el 32,9% de los pacientes no cumplen con el tratamiento [21]. La amigdalectomía puede reducir hasta en 3  $\text{cm H}_2\text{O}$  la presión de CPAP, con el consiguiente aumento en su tolerancia [22].

En adultos apenas hay datos sobre la amigdalectomía intracapsular que tan comúnmente se realiza en niños con AOS. El único estudio que evalúa parámetros de sueño tras amigdalectomía intracapsular realizada en pacientes adultos, objetivó una mejoría subjetiva del ronquido sin encontrar diferencias respecto al grupo control de amigdalectomía extracapsular [23]. No se evaluaron

otras variables de sueño y ninguna de carácter objetivo por lo que serán necesarios estudios que valoren los resultados de esta técnica en el paciente adulto con AOS.

## CONCLUSIONES

La exéresis de los tejidos linfoides hipertróficos en el paciente adulto con AOS resulta imprescindible. Esta cirugía elimina elementos obstructivos de la vía aérea superior favoreciendo su permeabilidad y estabilidad.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Cahali MB, Soares CF de P, Dantas DA da S, Formigoni GGS. Tonsil volume, tonsil grade and obstructive sleep apnea: is there any meaningful correlation? *Clinics (Sao Paulo)*. 2011;66(8):1347-52.
2. Nolan J, Brietzke SE. Systematic review of pediatric tonsil size and polysomnogram-measured obstructive sleep apnea severity. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2011;144(6):844-50.
3. Oliveira MCS, Tufik S, Haddad FLM, Santos-Silva R, Gregório LC, Bittencourt L. Systematic Evaluation of the Upper Airway in a Sample Population: Factors Associated with Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2015;153(4):663-70.
4. Luz Alonso-Álvarez M, Canet T, Cubell-Alarco M, Estivill E, Fernández-Julián E, Gozal D, et al. [Consensus document on sleep apnea-hypopnea syndrome in children (full version). Sociedad Española de Sueño. El Área de Sueño de la Sociedad Española de Neumología y Cirugía Torácica(SEPAR)]. *Arch Bronconeumol*. 2011;47 Suppl 5:0, 2-18.
5. Havas T, Lowinger D. Obstructive adenoid tissue: an indication for powered-shaver adenoidectomy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2002;128(7):789-91.
6. Yang L, Shan Y, Wang S, Cai C, Zhang H. Endoscopic assisted adenoidectomy versus conventional curettage adenoidectomy: a meta-analysis of randomized controlled trials. *Springerplus*. 2016;5:426.
7. Agrawal V, Agarwal PK, Agrawal A. Defining the Surgical Limits of Adenoidectomy so as to Prevent Recurrence of Adenoids. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2016;68(2):131-4.
8. Havas T, Lowinger D. Obstructive adenoid tissue: an indication for powered-shaver adenoidectomy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2002;128(7):789-91.
9. Costantini F, Salamanca F, Amaina T, Zibordi F. Videoendoscopic adenoidectomy with microdebrider. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2008;28(1):26-9.
10. Mediano O, González Mangado N, Montserrat JM, Alonso-Álvarez ML, Almendros I, Alonso-Fernández A, et al. International Consensus Document on Obstructive Sleep Apnea. *Arch Bronconeumol (Engl Ed)*. 2021;S0300-2896(21)00115-0.
11. Friedman M, Tanyeri H, La Rosa M, Landsberg R, Vaidyanathan K, Pieri S, et al. Clinical predictors of obstructive sleep apnea. *Laryngoscope*. 1999;109(12):1901-7.
12. Shotts SD, Welsh DV, Nakamura A, Stromberg AJ. Very-Low Energy Monopolar Reduces Post-Tonsillectomy Hemorrhage Versus Standard Energy Techniques. *Laryngoscope*. 2021;131(11):2505-11.
13. Sancaktar ME, Çelebi M, Yıldırım M, Can E, Akgül G, Ağrı İ, et al. Safety of outpatient admission and comparison of different surgical techniques in adult tonsillectomy. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2019;276(4):1211-9.
14. Pynnonen M, Brinkmeier JV, Thorne MC, Chong LY, Burton MJ. Coblation versus other surgical techniques for tonsillectomy. *Cochrane Database Syst Rev*. 2017;8:CD004619.
15. Camacho M, Li D, Kawai M, Zaghi S, Teixeira J, Senchak AJ, et al. Tonsillectomy for adult obstructive sleep apnea: A systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope*. septiembre de 2016;126(9):2176-86.
16. Sher AE, Schechtman KB, Piccirillo JF. The efficacy of surgical modifications of the upper airway

- in adults with obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep*. 1996;19(2):156-77.
17. Li HY, Wang PC, Lee LA, Chen NH, Fang TJ. Prediction of uvulopalatopharyngoplasty outcome: anatomy-based staging system versus severity-based staging system. *Sleep*. diciembre de 2006;29(12):1537-41.
  18. Choi JH, Cho SH, Kim SN, Suh JD, Cho JH. Predicting Outcomes after Uvulopalatopharyngoplasty for Adult Obstructive Sleep Apnea: A Meta-analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2016;155(6):904-13.
  19. Tschopp S, Tschopp K. Tonsil size and outcome of uvulopalatopharyngoplasty with tonsillectomy in obstructive sleep apnea. *Laryngoscope*. 2019;129(12):E449-54.
  20. Matarredona-Quiles S, Carrasco-Llatas M, Martínez-Ruiz de Apodaca P, Ortega-Beltrá N, Dalmau Galofre J. Is there a relationship between tonsil volume and the success of pharyngeal surgery among adult patients with obstructive sleep apnea? *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*. 2022; 2022;88(1):1-7.
  21. Almeida FR, Bansback N. Long-term effectiveness of oral appliance versus CPAP therapy and the emerging importance of understanding patient preferences. *Sleep*. 2013;36(9):1271-2.
  22. Nakata S, Noda A, Yanagi E, Suzuki K, Yamamoto H, Nakashima T. Tonsil size and body mass index are important factors for efficacy of simple tonsillectomy in obstructive sleep apnoea syndrome. *Clin Otolaryngol*. 2006; 31(1):41-5.
  23. Ericsson E, Ledin T, Hultcrantz E. Long-term improvement of quality of life as a result of tonsillectomy (with radiofrequency technique) and tonsillectomy in youths. *Laryngoscope*. 2007;117(7):1272-9.

## TRATAMIENTO QUIRÚRGICO DE LA APNEA OBSTRUCTIVA DEL SUEÑO: CIRUGÍA MAXILOFACIAL

### *Surgical treatment of obstructive sleep apnea: maxillofacial surgery*

Guillermo PLAZA-MAYOR <sup>1</sup>; Lourdes MANIEGAS-LOZANO <sup>2</sup>; Carlos O'CONNOR-REINA <sup>3</sup>;  
Peter Michael BAPTISTA-JARDÍN <sup>4</sup>; Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA <sup>5</sup>;  
Alfonso MARCO-GARRIDO <sup>6</sup>; Marina CARRASCO-LLATAS <sup>5</sup>

<sup>1</sup>*Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario de Fuenlabrada y Hospital Universitario La Zarzuela. Universidad Rey Juan Carlos. Madrid. España.*

<sup>2</sup>*Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial. Fundación Jiménez Díaz.*

<sup>3</sup>*Servicio de Otorrinolaringología de los Hospitales Quironsalud Marbella y Campo de Gibraltar, España.*

<sup>4</sup>*Servicio de Otorrinolaringología de la Clínica Universitaria de Navarra, Pamplona, España.*

<sup>5</sup>*Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Doctor Peset, Valencia, España.*

<sup>6</sup>*Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Reina Sofía, Murcia, España.*

Correspondencia: [gplaza.hflr@salud.madrid.org](mailto:gplaza.hflr@salud.madrid.org)

Fecha de recepción: 21 de noviembre de 2022

Fecha de aceptación: 6 de junio de 2023

Fecha de publicación: 15 de julio de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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 cirugía esquelética para tratamiento de la apnea obstructiva del sueño destacan dos técnicas principalmente: el avance maxilomandibular (MMA), asociado o no al avance geniogloso, y las técnicas de expansión maxilar, como la distracción osteogénica. Síntesis: Presentamos un resumen de las técnicas y resultados de cirugía maxilofacial en la apnea obstructiva de sueño. Conclusiones: Al actuar sobre el marco óseo, el ensanchamiento de la vía aérea superior de la cirugía esquelética ha demostrado ser estable y duradero en el tiempo, retrasando o dificultando el colapso de las partes blandas asociadas. Esta efectividad contrastada en el tratamiento de la AOS, con reducciones sostenidas del índice de apnea-hipopnea a largo plazo, han logrado su incorporación al consenso terapéutico.

PALABRAS CLAVE: apnea obstructiva del sueño; AOS; avance bimaxilar; expansión maxilar.

SUMMARY: Introduction and objective: Skeletal surgery for obstructive sleep apnea includes maxillo-mandibular advancement, with or without genioglossus advance, and maxillary expansion. Synthesis: We present a summary of techniques and results of maxillofacial surgery in obstructive sleep apnea. Conclusions: As upper airway improvement after bone surgery is stable and long-lasting, its effectiveness in reducing the apnea-hypopnea index is high in the long term, enabling this surgery to be included in recent consensus.

KEYWORDS: obstructive sleep apnea; OSA; maxillomandibular advancement; maxillary expansion.

## INTRODUCCIÓN

La cirugía esquelética para el tratamiento de la apnea obstructiva de sueño (AOS) ha cobrado especial relevancia en los últimos años. Presenta muy buenos resultados en cuanto a la mejoría y/o curación de la enfermedad y las técnicas quirúrgicas son muy previsibles, permitiendo una planificación muy precisa y presentan poco dolor postoperatorio.

En la cirugía esquelética para el tratamiento de la AOS destacan dos técnicas principalmente: el avance maxilomandibular (MMA), asociado o no al avance geniogloso, y las técnicas de expansión maxilar, como la distracción osteogénica [1-3]. En ambas se ha observado un significativo aumento del espacio retrolingual y retropalatal. Al actuar sobre el marco óseo, el ensanchamiento de la vía aérea superior (VAS) ha demostrado ser estable y duradero en el tiempo, retrasando o dificultando el colapso de las partes blandas asociadas. Esta efectividad contrastada en el tratamiento de la AOS, con reducciones sostenidas del índice de apnea-hipopnea (IAH) a largo plazo, han logrado su incorporación como primera línea de tratamiento en casos seleccionados [4] haciendo que deban considerarse como un tratamiento más en el amplio arsenal de opciones terapéuticas actuales.

Para ofrecer cirugía esquelética a un paciente con AOS, es fundamental para el cirujano realizar un diagnóstico preciso y establecer los puntos de mayor estrechamiento de la VAS. En la actualidad los cirujanos disponemos de tres herramientas fundamentales para el diagnóstico topográfico de la AOS: la exploración física en consulta, la

exploración bajo sueño inducido (DISE o somnoscopia) y la tomografía computarizada (TC), en especial la de haz cónico (tecnología *ConeBeam*). Esta última técnica permite una precisa evaluación anatómica de la VAS y está validada para establecer parámetros volumétricos y áreas seccionales en el espacio aéreo posterior, que son esenciales para planificar la cirugía esquelética [5], con la ayuda de los diferentes programas informáticos de los que disponemos. Igualmente, estas mediciones nos permiten hacer estudios comparativos pre y postoperatorios con el fin de establecer la mejora objetiva de los parámetros anatómicos (Figura 1).

Vamos a resumir los cuatro procedimientos quirúrgicos esqueléticos más habituales en la AOS, destacando la técnica, sus indicaciones y resultados.

### 1. EXPANSIÓN MAXILAR MEDIANTE DISTRACCIÓN OSTEOGÉNICA (*DISTRACTION OSTEOGENESIS MAXILLARY EXPANSION O DOME*)

La DOME es un concepto emergente en la cirugía de la AOS. Surge tras la identificación de un subgrupo de pacientes con AOS que presentan obstrucción nasal persistente y maxilar superior estrecho y profundo, en ausencia de desviación septal, hipertrofia de cornetes o colapso valvular nasal o en los que la cirugía nasal previa haya fracasado [6].

La DOME tiene como objetivo aumentar la anchura del suelo nasal, asociando así una

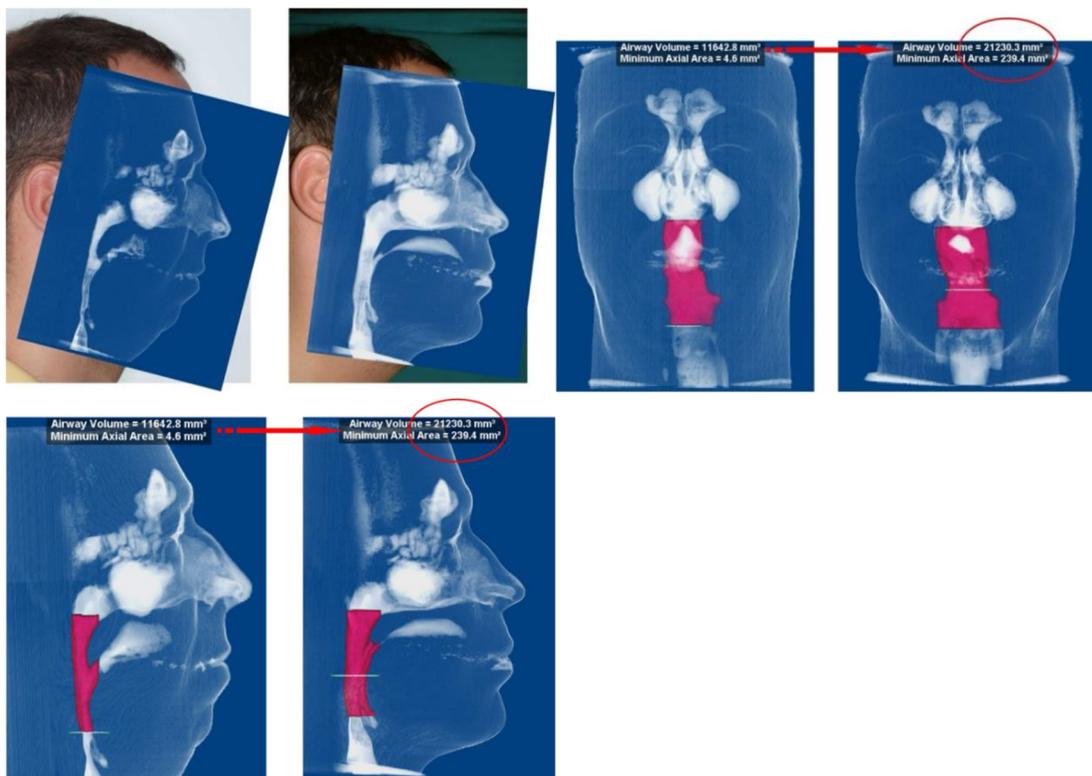


Figura 1. Imágenes coronales y sagitales de ConeBeam donde se mide el volumen de la vía aérea y el área seccional de mayor estrechamiento de la misma, antes y después de la cirugía.

disminución de la resistencia al paso del aire por las fosas nasales (Figura 2). Del mismo modo, se aumenta el espacio en la cavidad oral al ensancharse el paladar, de manera que la lengua puede acomodarse mejor y aumentar el espacio aéreo posterior. El procedimiento se lleva a cabo mediante osteotomías de LeFort I bilaterales y de la sutura medio palatina. A continuación, se coloca un expansor maxilar para la lograr la distracción ósea.

La DOME está indicada en pacientes con AOS grave (IAH>30) con hipoplasia esquelética transversal y mordida cruzada o con AOS moderada (IAH 15-30) con obstrucción nasal persistente y paladar estrecho y ojival, que no presenten desviación septal, hipertrofia de cornetes o colapso valvular

nasal o en los que la cirugía nasal previa haya fracasado [7-9].

En el metaanálisis de Abdullatif et al. [10], tanto el IAH (de  $24,3 \pm 27,5$  [IC del 95%: 15,3, 33,3] a  $9,9 \pm 13,7$  [IC del 95%: 5, 4, 14, 4] [reducción relativa del 59,3%]) como la saturación de oxígeno (de  $84,3 \pm 8,1\%$  [IC del 95%: 81,7, 87,0] a  $86,9 \pm 5,6\%$  [IC del 95%: 85,1, 88,7]) mejoran considerablemente, igual que la somnolencia.

## 2. CIRUGÍA SOBRE EL HUESO HIOIDES

El hueso hioides forma parte de la hipofaringe, y es la única estructura rígida de su pared anterior. En él se insertan los músculos genioglosos,

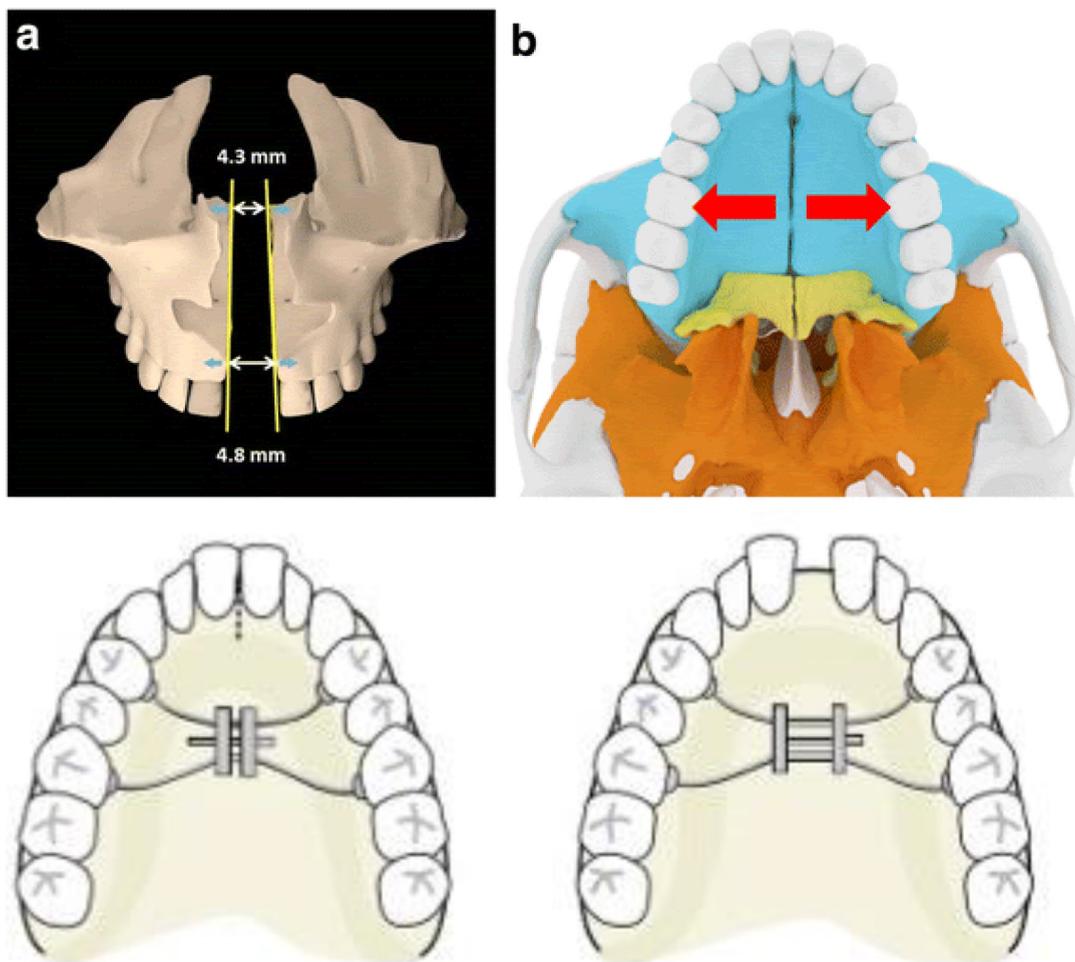


Figura 2. Planificación de una DOME. Osteotomía maxilar de ensanchamiento y colocación de distractor palatino para realizar en movimiento.

genihioideos y constrictores medios de la faringe, por lo que su posición es importante a la hora de mantener permeable la VAS. La suspensión hioidea se realiza por vía cervical anterior, con el paciente en decúbito supino y ligera hiperextensión. En primer lugar, se expone el tercio superior del cartílago tiroides. Al suturar el hioides anteroinferiormente al tiroides, se aumenta la estabilidad

de esta región, obteniendo un aumento del espacio retrolingual, lo que dificulta el colapso hipofaríngeo durante el sueño [11].

En el metaanálisis de Song et al. [12] se considera una cirugía efectiva en la AOS, con una tasa de éxito del 60%, especialmente cuando se asocia con otros procedimientos como UPPP o avance genioglosa.

### 3. OSTEOTOMÍA MANDIBULAR CON AVANCE DE GENIOGLOSO (AGG)

El músculo geniogloso es probablemente el músculo que se relaciona en mayor medida con la permeabilidad de la VAS a nivel retrolingual, y de su posición y actividad durante el sueño va a depender el calibre de la VAS. Durante la respiración, el músculo geniogloso se encarga de preservar esta permeabilidad de la vía aérea avanzando la base de la lengua. El descenso de su tono durante el sueño es considerado uno de los factores patogénicos más importantes de la apnea de sueño. Su avance trata de incrementar su tensión, para limitar el colapso de la lengua en la vía aérea superior durante la hipotonía muscular inducida por el sueño.

En 1984, Riley y Powell describieron por primera vez el avance geniogloso a modo de genioplastia horizontal de deslizamiento aislada asociada a una suspensión hioidea [1, 2]. Desde entonces se han desarrollado numerosas modificaciones, siendo las más habituales la genioplastia (osteotomía horizontal de deslizamiento del mentón), el avance del tubérculo geniogloso y esta última técnica asociada a una suspensión hioidea.

En el avance geniogloso se avanza el tubérculo geniano en unión con los músculos genioglosos y la base de la lengua mediante una osteotomía rectangular en la parte anterior del mentón por vía vestibular, inferior a las raíces de los incisivos y caninos, pudiendo llegar lateralmente hasta casi los orificios de salida de los nervios mentonianos (Figura 3). Se tracciona de la pastilla ósea y se

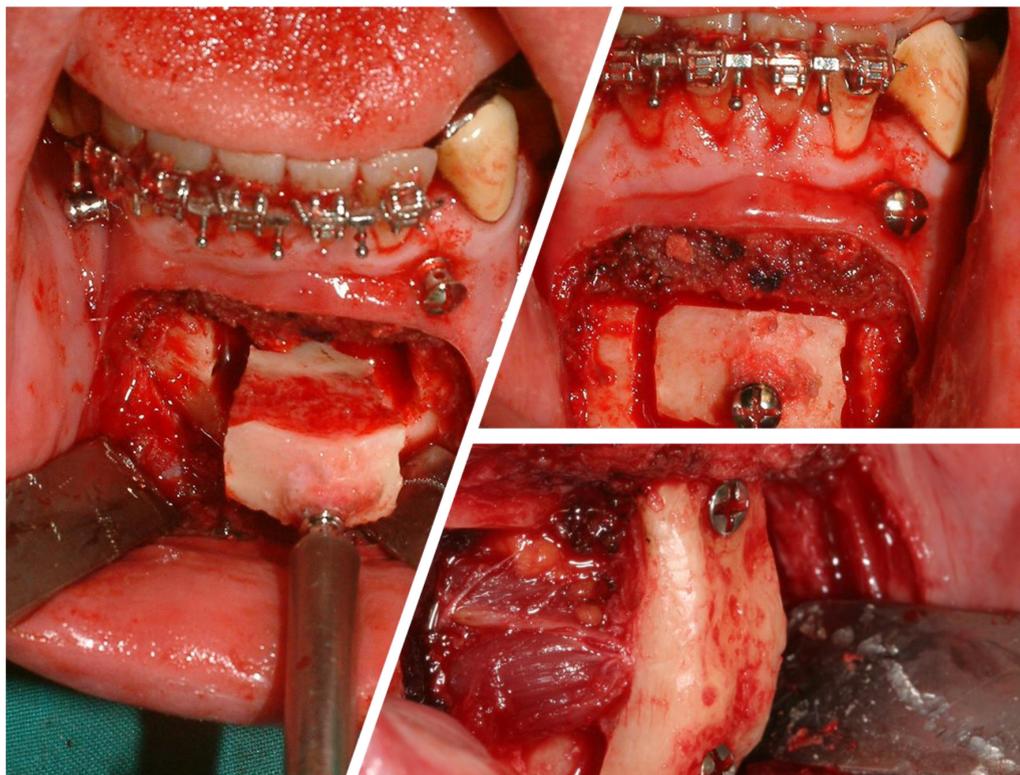


Figura 3. Avance tubérculo geniogloso. Vista quirúrgica.

gira 90° para fijarla al remanente óseo mediante miniplacas o tornillos. Se consiguen avances de la lengua de 8-18 mm, aumentando considerablemente el espacio aéreo posterior [13, 14]. Gracias a las técnicas de imagen (OPG), pero especialmente las 3D (ConeBeam), podemos definir de forma precisa el lugar donde se localizan los tubérculos en la cara interna mandibular y por lo tanto asegurar que la pastilla ósea contiene los músculos genioglosos para un correcto avance de los mismos (Figura 4).

Las indicaciones para esta cirugía son pacientes con obstrucción de la VAS a nivel orofaríngeo o

hipofaríngeo, que pueden o no asociar retrusión de la base de la lengua y tener o no repercusión estética facial, retrognatia mandibular con clase I de Angle, y AOS leve a moderada (IAH 5-30).

En el metaanálisis de Song et al. [15] se observó que, en la genioplastia aislada, el IAH disminuye de 18,8-3,8 (IC del 95%: 17,6, 20,0) a 10,8-4,0 (IC del 95%: 9,5, 12,1), reducción relativa del 43,8%. En el avance geniogloso el IAH se reduce de 37,6-24,2 (IC del 95%: 27,9, 47,3) a 20,4-15,1 (IC del 95%: 14,4, 26,4), una reducción relativa del 45,7%. Si además se asocia suspensión hioidea, el IAH se reduce de 34,5-22,1

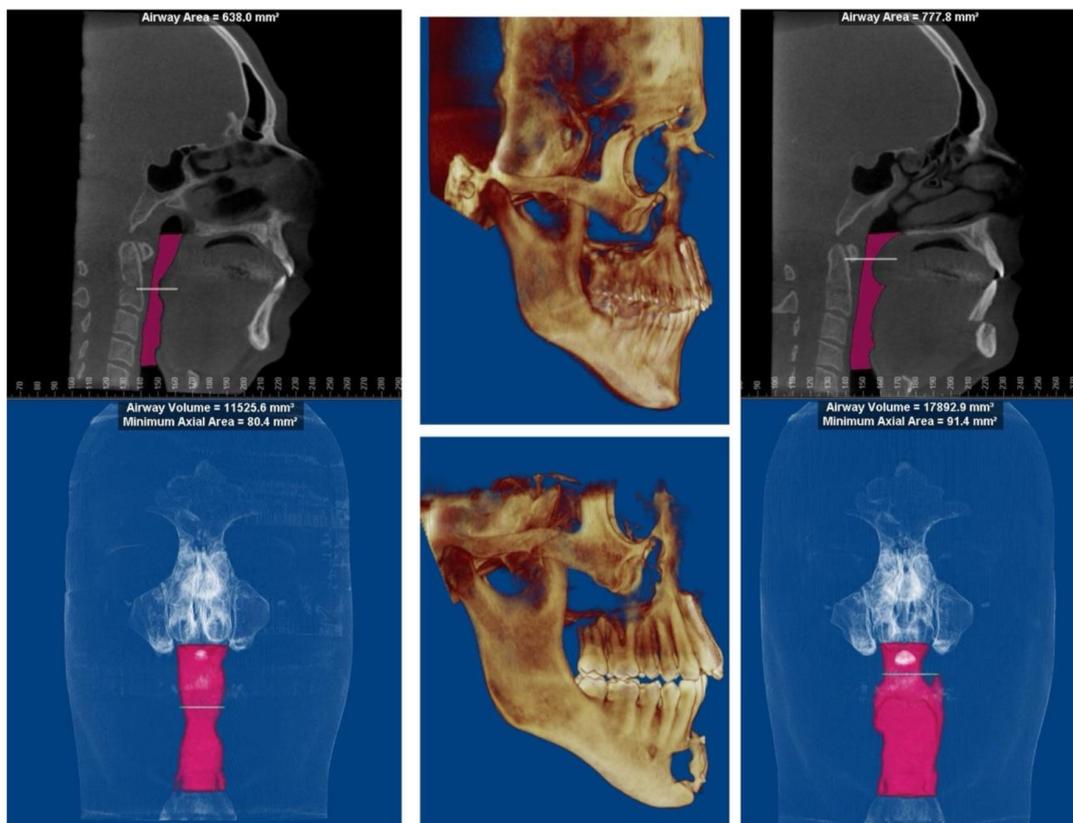


Figura 4. Gracias a las técnicas de imagen (OPG), pero especialmente las 3D (ConeBeam), podemos definir de forma precisa el lugar donde se localizan los tubérculos en la cara interna mandibular y por lo tanto asegurar que la pastilla ósea contiene los músculos genioglosos para un correcto avance de los mismos.

(IC del 95%: 28,4, 40,6) a 15,3-17,6 (IC del 95%: 10,4, 20,2), una reducción relativa del 55,7%. Del mismo modo se aprecia una mejoría significativa de los síntomas subjetivos en la ESS, así como un claro aumento en todos los casos de la mínima saturación de oxígeno postoperatoria.

#### 4. AVANCE MAXILOMANDIBULAR O BIMAXILAR (MMA)

El avance maxilomandibular (MMA) ha sido clásicamente el último escalón del tratamiento quirúrgico de la AOS. Sin embargo, recientes consensos y guías clínicas consideran que puede ser el tratamiento inicial más adecuado en determinados pacientes [4, 16-18].

Es la técnica quirúrgica más eficaz en el tratamiento de pacientes con AOS. Al avanzar los maxilares se produce una modificación de las estructuras anatómicas faríngeas y perifaríngeas que se insertan directa o indirectamente en los huesos maxilares, incrementando así la dimensión del espacio faríngeo y reduciendo por lo tanto el riesgo de colapso durante la inspiración en el sueño.

Estudios radiológicos sobre la morfología de la vía aérea en pacientes con AOS indican la tendencia de esta a ser más larga y estrecha que en pacientes sin apnea, y que el AMM produce un incremento de la dimensión anteroposterior y lateral de la VAS, junto con un acortamiento de su dimensión vertical, mejorando de forma significativa la resistencia al paso del aire por la misma. Por lo tanto, el AMM es la técnica quirúrgica que mejor actúa sobre la colapsabilidad de la VAS, siendo la estabilidad en la expansión lateral el factor que más se puede relacionar con la efectividad de la técnica en el tratamiento de la AOS.

El MMA consiste en realizar osteotomías maxilares tipo LeFort I y mandibulares sagitales tipo Obwegesser en el mismo acto quirúrgico, que permitan una movilización y nueva reposición de los fragmentos óseos en los 3 planos del espacio. La osteosíntesis se realiza mediante placas y tornillos. El movimiento de avance mandibular

se asocia a un movimiento de rotación antihorario del complejo óseo, centrado en el arbotante maxilar, consiguiendo un considerable aumento de la vía aérea posterior. Es deseable un avance mandibular mínimo de 8-12 mm para obtener los resultados deseados, así como una adecuada normalización del plano oclusal mandibular. Al avance maxilar se puede asociar una expansión del mismo mediante su segmentación; esto tiene un efecto potenciador sobre el efecto del MMA en la mejoría de la vía aérea superior.

En el procedimiento quirúrgico se deben tener en cuenta una serie de consideraciones en relación con este tipo de cirugía que difieren de un procedimiento clásico de cirugía ortognática:

- Pueden ser necesarios avances de gran magnitud.
- Pacientes con más edad y comorbilidades (HTA, DM, Obesidad...).
- Planificación más compleja.
- Consideraciones anestésicas: Intubación con fibroscopio debe estar disponible, TUBO NASAL, protocolo de hipotensión controlada, crioterapia postoperatoria.
- Molestias suelen ser menores que en otras técnicas (UPFP) debido a la hipoestesia transitoria en el territorio del trigémino (V) y sus ramas (II y III).
- Paciente con posible UPFP previa pueden presentar compromiso de la vascularización del maxilar superior en caso de osteotomía o estar predispuesto a una insuficiencia velofaríngea en función de la magnitud de avance maxilar necesario.

El tratamiento quirúrgico se acompaña en la mayoría de los casos de un tratamiento ortodóncico pre- y postoperatorio para mantener una adecuada oclusión y estética facial. Es fundamental una adecuada y fluida comunicación entre el cirujano y el ortodoncista encargado del caso, ya que el tratamiento completo suele durar en torno a los 24 meses. En algunos casos

se pueden hacer cirugías sin ortodoncia previa (“surgery first”) o con ortodoncia postoperatoria exclusivamente; todos estos casos deben evaluarse de forma exhaustiva y en combinación con el ortodontista para lograr un tratamiento efectivo, preciso en la técnica a realizar y que cubra las expectativas tanto del cirujano (a nivel funcional en términos de mejoría o curación de la

enfermedad) como del paciente ( en términos de clínica y estética facial) En la actualidad el cirujano maxilofacial además dispone de importantes herramientas diagnósticas (3D) y de planificación quirúrgica (virtual) que permiten una planificación quirúrgica detallada y muy precisa y unos resultados estéticos y funcionales excelentes [19] (Figuras 5 y 6).

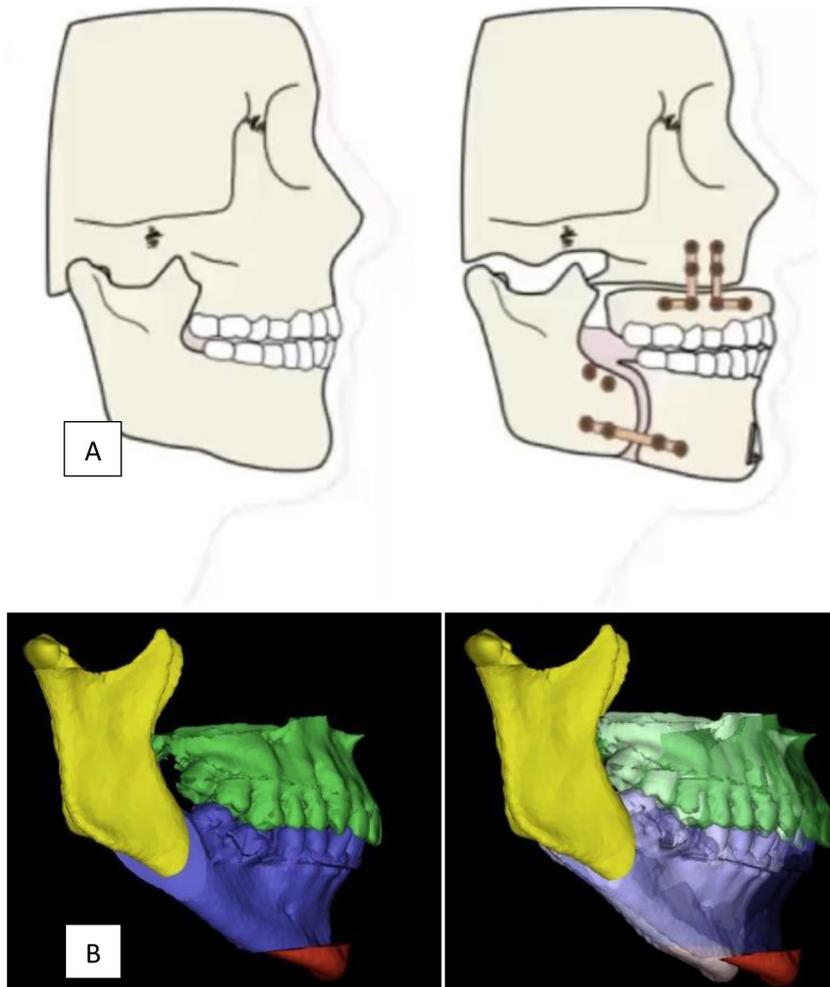


Figura 5. A. Avance maxilomandibular o bimaxilar (MMA): concepto. B. Planificación quirúrgica mediante programas 3D; se aprecian los movimientos de avance maxilar y mandibular con el consiguiente aumento de la VAS, así como mejora o armonización del perfil del paciente.

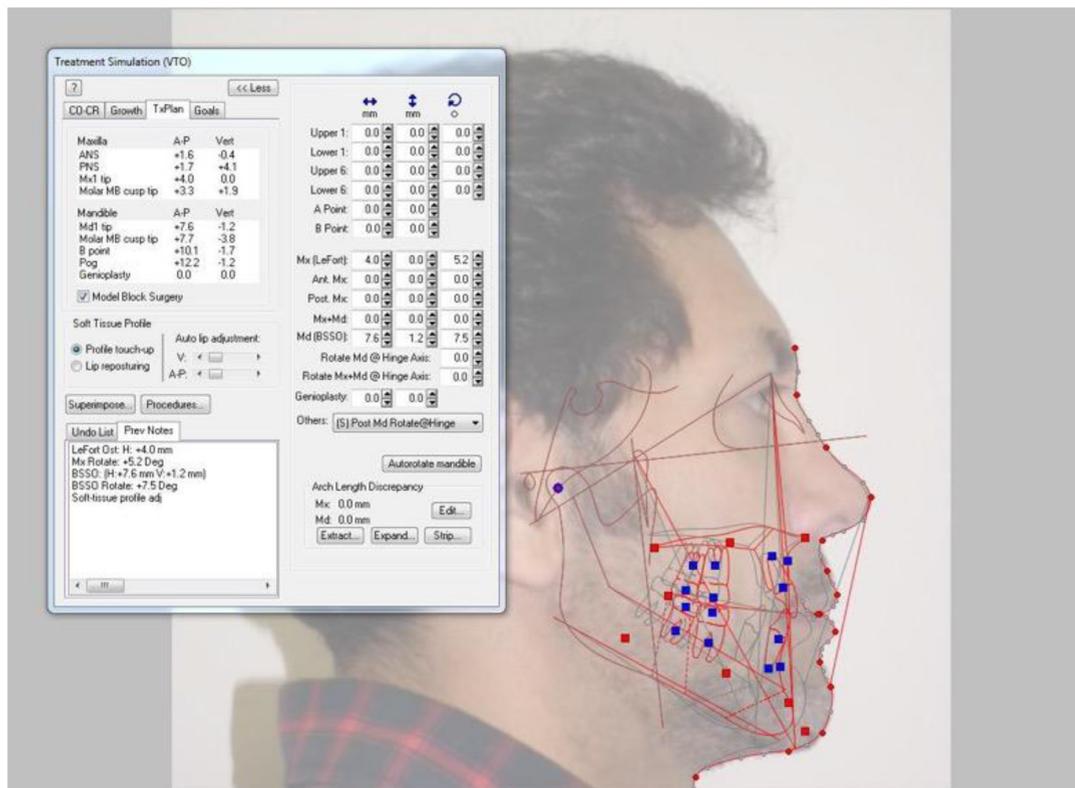


Figura 6. Avance bimaxilar (MMA): planificación prequirúrgica de los movimientos de avance y rotación antihoraria.

El MMA es la técnica quirúrgica más efectiva [25, 26] para el tratamiento de la AOS, alcanzando tasas de éxito superiores al 95%. Es un procedimiento óseo altamente estable a largo plazo, independientemente del sexo, edad en la cirugía, tiempo de seguimiento o cantidad de avance. Las indicaciones clásicas de esta técnica son AOS grave (IAH > 40), obesidad mórbida con desarrollo craneofacial normal, retrognatía mandibular severa (SNB < 74) y fallo o rechazo de otro tipo de terapias. Sin embargo, los criterios del protocolo actual posicionan al avance maxilomandibular como primer escalón quirúrgico terapéutico de la AOS en determinados casos, entre los que se incluyen estas tres posibilidades: Pacientes con AOS grave (IAH > 65)

y contraindicación de neuroestimulación o cirugía multinivel de tejidos blandos inadecuada, pacientes con deformidad dentofacial grave y pacientes con colapso concéntrico del velo del paladar y de la pared lateral faríngea en DISE, posición baja del hioides y ángulo mentocervical obtuso con inclinación marcada del plano oclusal [4, 16, 18].

En los últimos años se han publicado varios metaanálisis con muy buenos resultados de la técnica. Todos coinciden en que el MMA es un tratamiento altamente efectivo, con clara mejoría de los parámetros oximétricos (IAH, etc.) y de la calidad de vida y sintomatología del paciente (escala de Epworth o ESS), siendo todos los datos estadísticamente significativos.

El objetivo principal del metaanálisis de Rojo-Sanchís et al. [19] es investigar los efectos del avance bimaxilar en la VAS de pacientes con AOS mediante el estudio de los cambios 3D en posición vertical y supina y de los cambios oximétricos observados en IAH, RDI y LSAT, así como en la calidad de vida medida a través de la ESS. Incluye estudios con pacientes adultos diagnosticados de AOS a los que se realizó MMA, control con 3D CBCT o TC y medición de parámetros oximétricos y seguimiento a 6 meses. En la dimensión de la VAS se comparan resultados pre y postoperatorios y se aprecian cambios significativos. En la posición vertical el volumen aumenta de 7,7 a 10,7 cm<sup>3</sup> y en posición supina de 5,9 a 7,8 cm<sup>3</sup>, siendo también estadísticamente significativo. En los parámetros oximétricos hay mejoría estadísticamente significativa en todos ellos, igual que en la calidad de vida de los pacientes.

Por último, el metaanálisis de Camacho et al. [20] se centra en los resultados del MMA a corto, medio, largo y muy largo plazo. Se revisan un total de 445 estudios y 120 pacientes. Un total de 31 pacientes muestran una reducción del IAH de 48,3 episodios/h (IC del 95%: 42,1-54,5) pre-MMA a 8,4 (IC del 95%: 5,6, 11,2) a medio plazo; 54 pacientes muestran disminución del IAH de 65,8 episodios/h (IC del 95%: 58,8-72,8) pre-MMA a 7,7 (IC del 95%: 5,9, 9,5) a largo plazo, y 35 presentan disminución de 53,2 episodios/h (IC del 95%: 45, 61,4) pre-MMA a 23,1 (IC del 95%: 16,3, 29,9) a muy largo plazo. Concluyen que hay una clara mejoría del IAH y somnolencia a corto, medio y largo plazo, pero curiosamente, a muy largo plazo, se observa un empeoramiento de IAH, volviendo a una apnea moderada. La explicación para esto se basa en que los tejidos blandos se vuelven redundantes y laxos con el paso del tiempo, de manera que obstruyen de nuevo la vía aérea, empeorando la AOS. A nivel óseo, parece que la recidiva es mucho menos frecuente, aunque sigue siendo posible, ya que el envejecimiento propio del individuo provoca cierto grado de reabsorción y atrofia óseas.

Por otra parte, el MMA presenta una baja tasa de complicaciones (1-3%), siendo las más frecuentes las alteraciones neurosensoriales (hipoestesia del nervio dentario inferior), la maloclusión (mordida abierta) y las alteraciones temporomandibulares (molestias musculares, desplazamientos discales e incluso reabsorciones condilares) [19-24]. Las complicaciones pueden presentarse en cualquier procedimiento quirúrgico y el MMA no es la excepción, pudiendo ocurrirle aún al cirujano más experimentado. La información exhaustiva al paciente durante todo el proceso preoperatorio y el consentimiento informado quirúrgico son fundamentales en la relación médico paciente.

## CONCLUSIONES

En la cirugía esquelética para tratamiento de la apnea obstructiva del sueño (AOS) destacan dos técnicas principalmente: el avance maxilomandibular (MMA), asociado o no al avance geniogloso, y las técnicas de expansión maxilar, como la distracción osteogénica. Todas las técnicas quirúrgicas se realizan a nivel intraoral, evitando posibles cicatrices antiestéticas.

En ambas se ha observado un significativo aumento del espacio retrolingual y retropalatal. Al actuar sobre el marco óseo, el ensanchamiento de la vía aérea superior (VAS) ha demostrado ser estable y duradero en el tiempo, retrasando o dificultando el colapso de las partes blandas asociadas. Esta efectividad contrastada en el tratamiento de la AOS, con reducciones sostenidas del índice de apnea-hipopnea (IAH) a largo plazo, han logrado su incorporación como primera línea de tratamiento en casos seleccionados, con tasas de éxito superiores al 95%.

El éxito del tratamiento es el resultado de la combinación y aplicación de procedimientos médicos y quirúrgicos, basándose en la correcta selección del paciente y la precisión del tratamiento elegido

## BIBLIOGRAFÍA

1. Friedman M, Jacobowitz O, editors. Sleep apnea and snoring: surgical and nonsurgical therapy. 2nd ed. Philadelphia, EUA: Elsevier; 2019. pp. 329-340.
2. Hoekema A, de Lange J. Maxilofacial surgeries. En: Verse T, de Vries N. Current Concepts of Sleep Apnea Surgery. Stuttgart: Thieme; 2019. pp. 230-238.
3. Martínez Garza A, Cervantes Alanis A, Zabala Parra SI. Obstructive sleep apnea surgical treatment: maxillomandibular surgery. En: Lugo Saldaña R. Surgical Management in Snoring and Sleep-disordered Breathing. New Delhi: Jaypee. 2017. p. 140-156.
4. Mediano O, González Mangado N, Montserrat JM, Alonso-Álvarez ML, Almendros I, Alonso-Fernández A, et al.; el Spanish Sleep Network. International Consensus Document on Obstructive Sleep Apnea. Arch Bronconeumol. 2021 Mar 24;S0300-2896(21)00115-0. English, Spanish. doi: 10.1016/j.arbres.2021.03.017.
5. Shokri A, Ramezani K, Afshar A, Poorolajal J, Ramezani N. Upper Airway Changes Following Different Orthognathic Surgeries, Evaluated by Cone Beam Computed Tomography: A Systematic Review and Meta-analysis. J Craniofac Surg. 2021 Mar-Apr 01;32(2):e147-e152.
6. Liu SL, Guilleminault C, Yoon JS, Hoekema A, de Lange J. Distraction osteogenesis maxillary expansion. En: Verse T, de Vries N. Current Concepts of Sleep Apnea Surgery. Stuttgart: Thieme; 2019. pp. 239-242.
7. Liu SY, Guilleminault C, Huon LK, Yoon A. Distraction Osteogenesis Maxillary Expansion (DOME) for Adult Obstructive Sleep Apnea Patients with High Arched Palate. Otolaryngol Head Neck Surg. 2017 Aug;157(2):345-348.
8. Yoon A, Guilleminault C, Zaghi S, Liu SY. Distraction Osteogenesis Maxillary Expansion (DOME) for adult obstructive sleep apnea patients with narrow maxilla and nasal floor. Sleep Med. 2020 Jan;65:172-176.
9. Iwasaki T, Yoon A, Guilleminault C, Yamasaki Y, Liu SY. How does distraction osteogenesis maxillary expansion (DOME) reduce severity of obstructive sleep apnea? Sleep Breath. 2020 Mar;24(1):287-296.
10. Abdullatif J, Certal V, Zaghi S, Song SA, Chang ET, Gillespie MB, Camacho M. Maxillary expansion and maxillomandibular expansion for adult OSA: A systematic review and meta-analysis. J Craniomaxillofac Surg. 2016 May;44(5):574-8.
11. den Herder C, van Tinteren H, de Vries N. Hyoidthyroidpexia: a surgical treatment for sleep apnea syndrome. Laryngoscope. 2005 Apr;115(4):740-5.
12. Song SA, Wei JM, Buttram J, Tolisano AM, Chang ET, Liu SY, Certal V, Camacho M. Hyoid surgery alone for obstructive sleep apnea: A systematic review and meta-analysis. Laryngoscope. 2016 Jul;126(7):1702-8.
13. Cheng A. Genioglossus and Genioplasty Advancement. Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am. 2019 Mar;27(1):23-28.
14. Rojas R, Chateau R, Gaete C, Muñoz C. Genioglossus muscle advancement and simultaneous sliding genioplasty in the management of sleep apnoea. Int J Oral Maxillofac Surg. 2018 May;47(5):638-641.
15. Song SA, Chang ET, Certal V, Del Do M, Zaghi S, Liu SY, Capasso R, Camacho M. Genial tubercle advancement and genioplasty for obstructive sleep apnea: A systematic review and meta-analysis. Laryngoscope. 2017 Apr;127(4):984-992.
16. Liu SY, Wayne Riley R, Pogrel A, Guilleminault C. Sleep Surgery in the Era of Precision Medicine. Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am. 2019 Mar;27(1):1-5.
17. Liu SY, Awad M, Riley RW. Maxillomandibular Advancement: Contemporary Approach at Stanford. Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am. 2019 Mar;27(1):29-36.
18. Liu SY, Awad M, Riley R, Capasso R. The Role of the Revised Stanford Protocol in Today's Precision Medicine. Sleep Med Clin. 2019 Mar;14(1):99-107.
19. Rojo-Sanchis C, Almerich-Silla JM, Paredes-Gallardo V, Montiel-Company JM, Bellot-Arcís C. Impact of Bimaxillary Advancement Surgery on the Upper Airway and on Obstructive Sleep

- Apnea Syndrome: a Meta-Analysis. *Sci Rep*. 2018 Apr 10;8(1):5756.
20. Camacho M, Noller MW, Del Do M, Wei JM, Gouveia CJ, Zaghi S, Boyd SB, Guilleminault C. Long-term Results for Maxillomandibular Advancement to Treat Obstructive Sleep Apnea: A Meta-analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2019 Apr;160(4):580-593.
  21. Holty JE, Guilleminault C. Maxillomandibular advancement for the treatment of obstructive sleep apnea: a systematic review and meta-analysis. *Sleep Med Rev*. 2010 Oct;14(5):287-97.
  22. Cillo JE Jr, Dattilo DJ. Maxillomandibular Advancement for Severe Obstructive Sleep Apnea Is a Highly Skeletally Stable Long-Term Procedure. *J Oral Maxillofac Surg*. 2019 Jun;77(6):1231-1236.
  23. Zaghi S, Holty JE, Certal V, Abdullatif J, Guilleminault C, Powell NB, Riley RW, Camacho M. Maxillomandibular Advancement for Treatment of Obstructive Sleep Apnea: A Meta-analysis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2016 Jan;142(1):58-66.
  24. John CR, Gandhi S, Sakharia AR, James TT. Maxillomandibular advancement is a successful treatment for obstructive sleep apnoea: a systematic review and meta-analysis. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2018 Dec;47(12):1561-1571.
  25. Camacho M, Chang ET, Neighbors CLP, Noller MW, Mack D, Capasso R, Kushida CA. Thirty-five alternatives to positive airway pressure therapy for obstructive sleep apnea: an overview of meta-analyses. *Expert Rev Respir Med*. 2018 Nov;12(11):919-929.
  26. Zhou A, Li H, Wang X, Zhang J, Zhang Y, He J, Liu S. Preliminary comparison of the efficacy of several surgical treatments based on maxillomandibular advancement procedures in adult patients with obstructive sleep apnoea: a systematic review and network meta-analysis. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2021 Feb;278(2):543-555.

## ARTÍCULO DE REVISIÓN

# TRATAMIENTO QUIRÚRGICO DE LA APNEA OBSTRUCTIVA DEL SUEÑO MÁS ALLÁ DE LO HABITUAL: TRAQUEOTOMÍA Y CIRUGÍA BARIÁTRICA

## *Surgical treatment of obstructive sleep apnea: tracheostomy and bariatric surgery*

Guillermo PLAZA-MAYOR <sup>1</sup>; Carlos O'CONNOR-REINA <sup>2</sup>; Peter Michael BAPTISTA-JARDÍN <sup>3</sup>; Alfonso MARCO-GARRIDO <sup>4</sup>; Marina CARRASCO-LLATAS <sup>5</sup>; Paula MARTÍNEZ-RUIZ DE APODACA <sup>5</sup>

<sup>1</sup>*Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario de Fuenlabrada y Hospital Universitario La Zarzuela. Universidad Rey Juan Carlos. Madrid. España.*

<sup>2</sup>*Servicio de Otorrinolaringología de los Hospitales Quirónsalud Marbella y Campo de Gibraltar. España.*

<sup>3</sup>*Servicio de Otorrinolaringología de la Clínica Universitaria de Navarra, Pamplona, España.*

<sup>4</sup>*Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Reina Sofía. Murcia, España.*

<sup>5</sup>*Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Doctor Peset, Valencia, España.*

Correspondencia: [gplaza.hflr@salud.madrid.org](mailto:gplaza.hflr@salud.madrid.org)

Fecha de recepción: 21 de noviembre de 2022

Fecha de aceptación: 26 de mayo de 2023

Fecha de publicación: 15 de julio de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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: Históricamente, la traqueotomía fue el primer tratamiento con intención curativa de la apnea obstructiva del sueño (AOS). Sin embargo, supone unas secuelas que los pacientes difícilmente aceptan, por lo que actualmente apenas se realiza en la actualidad. Por otro lado, además de la cirugía de la vía aérea superior, cuando la obesidad es severa, con un índice de masa corporal (IMC)>35, la cirugía bariátrica se convierte en el mejor tratamiento quirúrgico de la AOS siendo creciente su indicación actual. Síntesis: Presentamos un resumen histórico del papel de la traqueotomía en la AOS y una perspectiva actual de las técnicas de cirugía bariátrica que son útiles en la AOS. Conclusiones: En la actualidad, la traqueotomía sólo tiene indicaciones muy excepcionales en pacientes con AOS. En pacientes

con AOS severa (IAH>30) y obesidad con IMC >35, el tratamiento quirúrgico más adecuado de la enfermedad es la cirugía bariátrica cuando haya intolerancia a la CPAP.

**PALABRAS CLAVE:** apnea obstructiva del sueño; AOS; traqueotomía; cirugía bariátrica.

**SUMMARY:** Introduction and objective: Historically, tracheostomy was the first curative treatment of obstructive sleep apnea (OSA). However, it causes important sequela that make it unacceptable nowadays. When obesity is severe, with a BMI>35, bariatric surgery has become the best and most common treatment for OSA. Synthesis: We present s summary of tracheostomy and bariatric surgery in OSA. Conclusions: Nowadays, tracheostomy has only minimal indications in OSA patients. In patients with severe OSA (AHI>30) and obesity with BMI>35, surgical treatment for OSA is bariatric surgery when patients do not tolerate CPAP.

**KEYWORDS:** obstructive sleep apnea; OSA; tracheostomy; bariatric surgery.

## INTRODUCCIÓN

Históricamente, la traqueotomía fue el primer tratamiento con intención curativa que fue ofrecido a los pacientes con apnea obstructiva del sueño (AOS) severa. Sin embargo, supone unas secuelas que los pacientes difícilmente aceptan, por lo que actualmente apenas se realiza en la actualidad.

Por otra parte, dado que la pérdida de peso es una pieza clave del tratamiento de la AOS, cuando la obesidad es severa, con un índice de masa corporal (IMC)>35, es conveniente recurrir a tratamientos quirúrgicos de la misma, que pueden resultar en mejoras significativas también en la AOS, como la cirugía bariátrica.

El objetivo de este trabajo es hacer una revisión histórica del papel que tuvo la traqueotomía en la AOS, y presentar la evidencia que justifica la indicación actual de la cirugía bariátrica en algunos casos de AOS severa asociada a obesidad.

### 1. TRAQUEOTOMÍA EN LA AOS

Después de la descripción que hizo Dickens de un personaje con síntomas de AOS [1], llamándose Pickwick al síndrome entonces, transcurrió un siglo sin hallarse un tratamiento que pretendiera solucionar la enfermedad.

Fue a finales de los años 60 del siglo XX cuando se describió la efectividad de la traqueotomía como

tratamiento de la AOS. En 1969, Kuhlo había demostrado que la somnolencia de los pacientes «pickwickian» estaba relacionada con la interrupción del sueño inducida por la respiración anormal y asociada con la obstrucción de la vía aérea superior (VAS). Cuando esta obstrucción fue superada por una traqueostomía, se produjo un claro impacto sobre la presión pulmonar durante el sueño. Estos resultados resaltan la importancia del papel de la fragmentación del sueño, secundario a la apnea. Además, Kuhlo fue el primero en realizar una traqueotomía para superar la respiración anormal durante el sueño, identificando un tratamiento potencial del problema [2]. En la década de los 70 del siglo XX, continuó demostrándose la efectividad de la traqueotomía, logrando revertir los efectos cardiovasculares inducidos por la AOS [3], garantizando un efecto duradero [4, 5].

Sin embargo, la traqueotomía supone importantes secuelas para el habla en el paciente con AOS, así como frecuentes complicaciones locales como los granulomas traqueales o las estenosis del estoma, que hacen necesario reservar esta cirugía para casos muy complejos [6]. La aceptación de los pacientes e, incluso, de los propios otorrinolaringólogos, a realizar una traqueotomía por AOS fue disminuyendo progresivamente.

La irrupción de las técnicas quirúrgicas sobre el paladar como la UPPP, el progresivo conocimiento

de la fisiopatología de las obstrucciones de la VAS y, sobre todo, la expansión de la CPAP como tratamiento de la mayoría de los pacientes con AOS hicieron que la indicación de la traqueotomía desapareciera [7, 8].

No obstante, todavía hoy puede tener algunas indicaciones excepcionales en pacientes en que otros tratamientos han fracasado, ya que en estos casos se han demostrado sus efectos beneficiosos a largo plazo, como se demuestra en dos metanálisis, tanto en adultos [9] como en niños [10].

En adultos, el metanálisis de Camachio et al. recogió 18 estudios con un total de 286 pacientes en los que el IAH mejoró de  $92 \pm 38$  a  $17,3 \pm 20,5$ , con una diferencia media significativa de 83,47 ( $p < 0,0001$ ). Además, en dos de estos estudios se observe una reducción de la mortalidad superior en el grupo tratado con traqueotomía frente al tratado con CPAP o medidas conservadoras [11, 12].

En la actualidad, el paciente con AOS sería candidato a traqueotomía si fracasa el tratamiento médico, no tolera la CPAP, no responde al tratamiento quirúrgico de la VAS y rechaza la cirugía maxilofacial. Además, es fundamental hacer al paciente una polisomnografía la noche siguiente a la traqueotomía por la eventual aparición de apneas centrales [4, 13-15].

## 2. CIRUGÍA BARIÁTRICA EN LA AOS

Tal como se recoge en el documento internacional de consenso sobre la AOS, la pérdida de peso es una pieza clave del tratamiento de la AOS, dado que la obesidad es el factor de riesgo más habitual [16]. Hasta un 60-90% de los pacientes que tienen un  $IMC > 30$  padecen de AOS, y dicha relación va en aumento conforme aumenta el peso del paciente. La incidencia en la población general del AOS es del 5-15%, mientras que en personas obesas sube hasta el 45% de los pacientes [17-19].

Las razones fundamentales por la que las personas que sufren de obesidad también padecen AOS son dos: en primer lugar, el aumento de los depósitos de grasa en los tejidos circundantes

a la VAS, lo que provoca una disminución del diámetro de la misma, provocando que se colapse con mayor facilidad; en segundo lugar, el aumento de los depósitos de grasa alrededor del tórax, lo que reduce la capacidad de expansión del mismo, provocando un aumento en la demanda de oxígeno del cuerpo ya que reduce la capacidad pulmonar. Irónicamente, y para empeorar la situación, los pacientes con AOS tienen una predisposición a provocar obesidad ya que esta enfermedad aumenta el apetito y reduce la capacidad de la persona para mantenerse activo por la somnolencia tan severa que provoca [16, 20, 21].

Cuando la obesidad es severa, con  $IMC > 35$ , es conveniente recurrir a tratamientos quirúrgicos de la misma, que además consiguen mejorías significativas en la AOS y sus consecuencias cardiovasculares y metabólicas [20-23]. Así, la cirugía bariátrica ha demostrado ser efectiva tanto en el tratamiento de la obesidad como en la AOS, y muy superior a las dietas [24, 25].

La cirugía bariátrica incluye diferentes procedimientos quirúrgicos mayores: el *bypass* gástrico en Y de Roux, quizás el procedimiento más común; la gastrectomía vertical laparoscópica (manga gástrica o *sleeve gastrectomy*), donde se extirpa un 80% del estómago, el cual adquiere la forma de una bolsa larga en forma de tubo; y la derivación biliopancreática con cruce duodenal. También es posible realizar procedimientos menos invasivos, como la banda gástrica ajustable o el balón gástrico (Figura 1). Existen numerosos trabajos comparando las diferentes técnicas, siendo las más efectivas el *bypass* gástrico en Y de Roux y la gastrectomía vertical laparoscópica, si bien muchos pacientes se inician con la banda o el balón, siendo la cirugía mayor el rescate de los casos que fracasan [26-30].

Mediante la cirugía bariátrica se consigue aumentar el volumen de la VAS de forma significativa y correlacionada con la mejoría obtenida en parámetros polisomnográficos como el IAH [31].

Por ello, los consensos actuales recomiendan que, en pacientes con AOS severa ( $IAH > 30$ ) y



Figura 1. Tipos de cirugía bariátrica.

obesidad con IMC >35 el tratamiento quirúrgico de la enfermedad sea la cirugía bariátrica cuando haya intolerancia a la CPAP [16]. En pacientes con IMC 30-35, no hay contraindicación absoluta a la cirugía bariátrica, debiendo individualizarse cada caso, asociando el tratamiento dietético y el cambio del estilo de vida a la cirugía.

Después de la cirugía bariátrica, es necesario un seguimiento postoperatorio estrecho para determinar la necesidad de CPAP para la eventual AOS residual que pueda quedar y el cambio de estilo de vida necesario para mantener los resultados obtenidos con la cirugía [32].

## CONCLUSIONES

En la actualidad, la traqueotomía sólo tiene indicaciones muy excepcionales en pacientes con AOS en que otros tratamientos han fracasado.

En pacientes con AOS severa (IAH>30) y obesidad con IMC >35 el tratamiento quirúrgico de la enfermedad es la cirugía bariátrica cuando haya intolerancia a la CPAP.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Dickens C. The Posthumous Papers of the Pickwick club. London: Chapman and Hall; 1837.
2. Kuhlo W, Doll E, Franc MC. Erfolgreiche behandlung eines Pickwick Syndrom durch eine dauertracheal kanule. Dtsch Med Wochenschr. 1969;94:1286-90.
3. Tilkian AG, Guilleminault C, Schroeder JS, Lehrman KL, Simmons FB, Dement WC. Sleep-induced apnea syndrome. Prevalence of cardiac arrhythmias and their reversal after tracheostomy. Am J Med. 1977 Sep;63(3):348-58.
4. Guilleminault C, Simmons FB, Motta J, Cumiskey J, Rosekind M, Schroeder JS, Dement WC. Obstructive sleep apnea syndrome and tracheostomy. Long-term follow-up experience. Arch Intern Med. 1981 Jul;141(8):985-8.
5. Kim SH, Eisele DW, Smith PL, Schneider H, Schwartz AR. Evaluation of patients with sleep apnea after tracheotomy. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1998 Sep;124(9):996-1000.
6. Conway WA, Victor LD, Magilligan DJ Jr, Fujita S, Zorick FJ, Roth T. Adverse effects of

- tracheostomy for sleep apnea. *JAMA*. 1981 Jul 24-31;246(4):347-50.
7. Stradling JR. Avoidance of tracheostomy in sleep apnoea syndrome. *Br Med J (Clin Res Ed)*. 1982 Aug 7;285(6339):407-8.
  8. Mattox DE, Gates GA. Alternatives to tracheostomy in sleep apnea. *N Engl J Med*. 1983 Mar 17;308(11):656.
  9. Camacho M, Certal V, Brietzke SE, Holty JE, Guilleminault C, Capasso R. Tracheostomy as a treatment for adult obstructive sleep apnea: a systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope* 2014;124(3):803-11.
  10. Fray S, Biello A, Kwan J, Kram YA, Lu K, Camacho M. Tracheostomy for paediatric obstructive sleep apnoea: A systematic review. *J Laryngol Otol* 2018;132(8):680-4.
  11. He J, Kryger MH, Zorick FJ, Conway W, Roth T. Mortality and apnea index in obstructive sleep apnea. Experience in 385 male patients. *Chest* 1988;94:9-14.
  12. Partinen M, Jamieson A, Guilleminault C. Long-term outcome for obstructive sleep apnea syndrome patients. Mortality. *Chest* 1988;94:1200-4.
  13. Haapaniemi JJ, Laurikainen EA, Halme P, Antila J. Long-term results of tracheostomy for severe obstructive sleep apnea syndrome. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 2001;63:131-136.
  14. Fletcher EC. Recurrence of sleep apnea syndrome following tracheostomy. A shift from obstructive to central apnea. *Chest* 1989;96:205-209.
  15. Kumar A, Camacho M, Capasso R. Quantitative assessment of an obstructive sleep apnea patient before and after tracheostomy: a case study. *J Otol Rhinol*. 2013;2(2):15-18.
  16. Mediano O, González Mangado N, Montserrat JM, Alonso-Álvarez ML, Almendros I, Alonso-Fernández A, et al. International Consensus Document on Obstructive Sleep Apnea. *Arch Bronconeumol*. 2022 Jan;58(1):52-68. English, Spanish.
  17. Joosten SA, Hamilton GS, Naughton MT. Impact of Weight Loss Management in OSA. *Chest* 2017;152:194-203.
  18. Hudgel DW, Patel SR, Ahasic AM, Bartlett SJ, Bessesen DH, Coaker MA, et al. The Role of Weight Management in the Treatment of Adult Obstructive Sleep Apnea. An Official American Thoracic Society Clinical Practice Guideline. *Am J Respir Crit Care Med*. 2018 Sep 15;198(6):e70-e87.
  19. Carneiro-Barrera A, Díaz-Román A, Guillén-Riquelme A, Buela-Casal G. Weight loss and lifestyle interventions for obstructive sleep apnoea in adults: Systematic review and meta-analysis. *Obes Rev*. 2019 May;20(5):750-762.
  20. Chen JL, Moon TS, Schumann R. Bariatric surgery in patients with obstructive sleep apnea. *Int Anesthesiol Clin*. 2022 Apr 1;60(2):50-58.
  21. Sarkhosh K, Switzer NJ, El-Hadi M, Birch DW, Shi X, Karmali S. The impact of bariatric surgery on obstructive sleep apnea: a systematic review. *Obes Surg*. 2013 Mar;23(3):414-23.
  22. Buchwald H, Avidor Y, Braunwald E, Jensen MD, Pories W, Fahrbach K, Schoelles K. Bariatric surgery: a systematic review and meta-analysis. *JAMA*. 2004 Oct 13;292(14):1724-37.
  23. Ming X, Yang M, Chen X. Metabolic bariatric surgery as a treatment for obstructive sleep apnea hypopnea syndrome: review of the literature and potential mechanisms. *Surg Obes Relat Dis*. 2021 Jan;17(1):215-220.
  24. Dixon JB, Schachter LM, O'Brien PE, Jones K, Grima M, Lambert G, Brown W, Bailey M, Naughton MT. Surgical vs conventional therapy for weight loss treatment of obstructive sleep apnea: a randomized controlled trial. *JAMA*. 2012 Sep 19;308(11):1142-9.
  25. Fredheim JM, Rollheim J, Sandbu R, Hofso D, Omland T, Røislien J, Hjeltnes J. Obstructive sleep apnea after weight loss: a clinical trial comparing gastric bypass and intensive lifestyle intervention. *J Clin Sleep Med*. 2013 May 15;9(5):427-32.
  26. Kang JH, Le QA. Effectiveness of bariatric surgical procedures: A systematic review and network meta-analysis of randomized controlled trials. *Medicine (Baltimore)*. 2017 Nov;96(46):e8632.
  27. Hayoz C, Hermann T, Raptis DA, Brönnimann A, Peterli R, Zuber M. Comparison of metabolic outcomes in patients undergoing laparoscopic roux-en-Y gastric bypass versus sleeve

- gastrectomy - a systematic review and meta-analysis of randomised controlled trials. *Swiss Med Wkly*. 2018 Jul 5;148:w14633.
28. Guardiano SA, Scott JA, Ware JC, Schechner SA. The long-term results of gastric bypass on indexes of sleep apnea. *Chest*. 2003 Oct;124(4):1615-9.
29. Feigel-Guiller B, Drui D, Dimet J, Zair Y, Le Bras M, Fuertes-Zamorano N, Cariou B, Letesier E, Nobécourt-Dupuy E, Krempf M. Laparoscopic Gastric Banding in Obese Patients with Sleep Apnea: A 3-Year Controlled Study and Follow-up After 10 Years. *Obes Surg*. 2015 Oct;25(10):1886-92.
30. Peromaa-Haavisto P, Tuomilehto H, Kössi J, Virtanen J, Luostarinen M, Pihlajamäki J, Käkälä P, Victorzon M. Obstructive sleep apnea: the effect of bariatric surgery after 12 months. A prospective multicenter trial. *Sleep Med*. 2017 Jul;35:85-90.
31. Zhao Y, Li T, Zhang G, Liang X, Wang Y, Kang J, Ma J. Bariatric surgery reduces sleep apnea in obese patients with obstructive sleep apnea by increasing pharyngeal cross-sectional area during the early postoperative period. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2023 May;280(5):2435-2443.
32. van Zeller C, Brown R, Cheng M, Meurling J, McGowan B, Steier J. Peri-operative outcomes of bariatric surgery in obstructive sleep apnoea: a single-centre cohort study. *J Thorac Dis*. 2023 Feb 28;15(2):802-811.

## FASCITIS NECROTIZANTE CERVICAL DE ORIGEN ODONTÓGENO. DESCRIPCIÓN DE UN CASO

### *Cervical necrotizing fasciitis of odontogenous origin. A case report*

Dolores RODRÍGUEZ-RODRÍGUEZ<sup>ID</sup>; Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ<sup>ID</sup>;  
Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS<sup>ID</sup>

*Hospital Universitario Virgen de la Victoria de Málaga. Universidad de Málaga. Málaga. España.*

*Correspondencia: cristinasanzsanchez03@gmail.com*

Fecha de recepción: 9 de marzo de 2024

Fecha de aceptación: 8 de mayo de 2024

Fecha de publicación: 10 de mayo de 2024

Fecha de publicación del fascículo: 24 de diciembre 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 infecciones necrotizantes de tejidos blandos son infecciones con riesgo para la vida. El diagnóstico y tratamiento precoz son cruciales para mejorar la supervivencia. Descripción: mujer de 60 años con una fascitis necrotizante cervical de origen odontógeno con rápida evolución a shock séptico. Durante el ingreso precisó de tratamiento antibiótico de amplio espectro, apoyo sistémico y realización de varias cervicotomías. Discusión: La localización cervical supone el 2.6-5% de las fascitis necrotizantes, con un origen principalmente odontógeno y polimicrobiano. El compromiso sistémico es desproporcionado a las manifestaciones locales. El tratamiento quirúrgico temprano es clave para la supervivencia, pudiendo dejar grandes defectos tisulares. Conclusiones: la fascitis necrotizante cervical es una entidad rara. Su origen más frecuente son las infecciones odontógenas, pero también hay que sospecharla tras una infección faríngea. Debido a su baja incidencia y alta tasa de mortalidad, el índice de sospecha ante esta enfermedad debe ser alta.

**PALABRAS CLAVE:** Fascitis necrotizante cervical; infecciones cervicales; necrosis; anaerobios.

**SUMMARY:** Introduction and objective: Necrotizing soft tissue infections are life-threatening infections. Early diagnosis and treatment are crucial to improve survival. Description: 60-year-old woman with cervical necrotizing fasciitis of odontogenic origin with rapid evolution to septic shock. During admission, he required broad-spectrum antibiotic treatment, systemic support, and several cervicotomies. Discussion: The cervical location accounts for 2.6-5% of necrotizing fasciitis, with a mainly odontogenic and polymicrobial origin. The systemic commitment is disproportionate to the local manifestations. Early surgical treatment is key to survival and can leave large tissue defects. Conclusions: cervical necrotizing fasciitis is a rare entity. Its most common origin is odontogenic infections, but it must also be suspected after a pharyngeal infection. Due to its low incidence and high mortality rate, the index of suspicion for this disease should be high.

**KEYWORDS:** Cervical necrotizing fasciitis; neck infections; necrosis; anaerobes.

## INTRODUCCIÓN

Las fascitis necrotizantes son infecciones caracterizadas por necrosis del tejido celular subcutáneo, la fascia o el músculo, que asocian gran morbilidad y mortalidad [1]. Están típicamente causadas por bacterias productoras de toxinas y se caracterizan clínicamente por una progresión fulminante de la enfermedad con importante destrucción tisular. Cuando la infección se hace sintomática, la evolución de la enfermedad se mide en horas, por lo que el diagnóstico y tratamiento precoz son cruciales para mejorar la supervivencia [2]. Aunque se trate patología de baja incidencia, su importancia radica en la gravedad del cuadro, con una elevada tasa de mortalidad, que fluctúa entre 40% y 80% [3]. La incidencia de las infecciones necrotizantes se ha visto incrementada en las últimas décadas, ocasionando que la mayoría de médicos atiendan al menos un caso potencialmente mortal de este tipo de infección durante su carrera profesional [1], por lo que consideramos importante su conocimiento para poder sospecharlo y actuar precozmente.

Presentamos un caso clínico de fascitis necrotizante cervical de origen dentario, exponiendo el diagnóstico, tratamiento y seguimiento de la paciente.

## DESCRIPCIÓN

Mujer de 60 años, diabética tipo 2 con afectación de órgano diana (renal y ocular), que

acude a su médico de familia tras comenzar con odinofagia, sin disnea ni disfagia, de 48 horas de evolución, iniciando tratamiento antiinflamatorio con naproxeno. Progresó con dolor laterocervical derecho, inflamación y exantema en la zona de escote, que evoluciona en pocas horas en extensión, asociando prurito y quemazón, así como dolor abdominal y vómitos.

A la exploración, se objetivó mal estado general, con tendencia a la hipotensión. Presentaba placas equimóticas y calientes en región de escote y ambas mamas, con vesículas y ampollas, con signo de Nikolsky positivo. En cavidad oral se observaron piezas dentales en mal estado, cariadas y con restos radiculares, sin eritema de orofaringe, ni signos de amigdalitis o sus complicaciones. Se palpa un aumento de partes blandas de 5x5cm en área cervical VI derecha, ligeramente dolorosa a la palpación. En la nasofibrolaringoscopia no encontramos datos de interés.

Analíticamente leucocitosis con desviación izquierda, PCR 354, procalcitonina 9.8, ácido láctico 4.4 y acidosis metabólica. El LRINEC score (*Laboratory Risk Indicator for Cervical Necrotizing fasciitis*) fue de 8.

En el TAC cervical con contraste se observaron cambios inflamatorios/flemonosos que se extienden por espacio carotídeo y cervical posterior derecho hasta región infraclavicular con celulitis, miositis (esternocleidomastoideo y musculatura esternal), así como rarefacción de la grasa mediastínica.

Debido al estado crítico de la paciente, sugere de shock séptico con origen otorrinolaringológico, se decide inicio de tratamiento antibiótico empírico de amplia cobertura y uso de drogas vasoactivas. Tras estabilizar a la paciente, se realizó una cervicotomía derecha con desbridamiento de los tejidos desnaturalizados, procediendo a la toma de muestras para biopsia y la realización de una traqueotomía profiláctica (Figura 1). Durante la cirugía se aprecia tejido flemonoso y rarefacto, con trasudado amarillento-seroso, sin contenido purulento ni fétido, dejando expuesta en lecho quirúrgico la vena yugular interna debido al amplio desbridamiento precisado.

La paciente es ingresada en la Unidad de Cuidados Críticos (UCI). El resultado del cultivo mostraba infección por *Streptococcus pyogenes* sensible a penicilina y clindamicina.

Las lesiones mamarias (Figura 2) progresaron a escaras necróticas que ocupaban su práctica totalidad, incluyendo la fascia del pectoral mayor hasta la fascia cervical y llegando hasta el hombro derecho. Se realizó escarectomía de ambas mamas con exéresis de fascia del pectoral mayor.

Durante su ingreso precisó dos reintervenciones quirúrgicas, la primera por laceración importante de la vena yugular interna por endarteritis y

la segunda para escarectomía de placas necróticas de región escapular y drenaje de colección a nivel VB y zona supraclavicular.

En su evolución la paciente sufre diversas complicaciones tales como insuficiencia renal aguda, neumonía por *Acromobacter* resistente y hemorragia intraparenquimatosa con drenaje a ventrículos, que conduce finalmente a su fallecimiento tras 52 días de ingreso en UCI.

## DISCUSIÓN

La fascitis necrotizante se presenta comúnmente en la región perineal, abdomen y extremidades, siendo rara a nivel de cabeza y cuello, constituyendo entre el 2,6 y 5% de todas las fascitis necrotizantes [5-7]. A nivel cervical es comúnmente secundaria a una infección odontogénica y, con menor frecuencia, puede estar relacionada con traumatismos o infecciones faríngeas [8].

Esta infección es causada habitualmente por especies aerobias de estreptococos, especialmente *S. pyogenes* y de estafilococos, fundamentalmente *S. aureus*. Sin embargo, en la mayoría de casos es polimicrobiana con participación de microorganismos anaerobios [3, 9]. En nuestra paciente

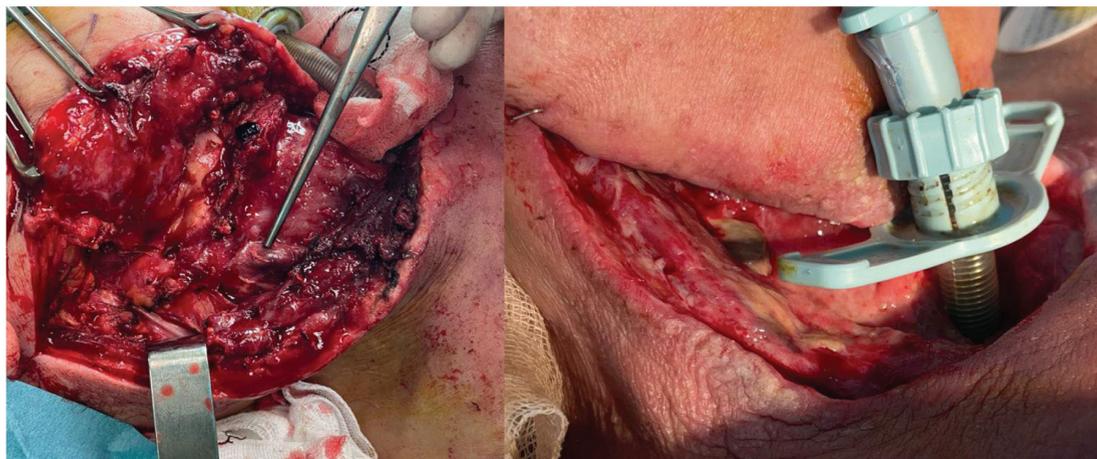


Figura 1. Cervicotomía derecha y traqueotomía profiláctica.



Figura 2. Lesiones mamarias de fascitis necrotizante.

se detectó *S. pyogenes* en toma de muestra intraquirúrgica.

La infección, producción de toxinas, activación de citoquinas, microtrombosis e isquemia, junto a la disfunción tisular y muerte del tejido, concurren en una mayor diseminación de la infección, que es fundamental para que se produzca la necrosis rápidamente progresiva que acontece en la fascitis necrotizante y la diferencia de otras infecciones no complicadas de la piel y tejidos blandos [10].

Debido a la escasez de signos clínicos específicos iniciales de esta patología, debe ser siempre sospechada ante cualquier infección cervical, especialmente cuando el compromiso sistémico es desproporcionado a las manifestaciones locales [3]. Infravalorar la severidad de la enfermedad conlleva

un retraso en el inicio de antibioterapia y desbridamiento quirúrgico que puede ser fatal [6].

La fascitis necrotizante está asociada a la presencia de una respuesta inflamatoria sistémica y sepsis que ocasiona cambios bioquímicos y hematológicos que son indicadores predictivos de la evolución del cuadro [6]. Un valor mayor o igual a 6 en el LRINEC score incrementa la sospecha de fascitis necrotizante y se asocia con una probabilidad de un 50% de desarrollarla, presentando un alto valor predictivo negativo (99%) [6, 7].

Los principales factores de riesgo para el desarrollo de la enfermedad son la inmunodepresión, diabetes mellitus, arteriopatía periférica y cirugías recientes [11].

La realización de una TAC de cuello y tórax con contraste es imprescindible para el adecuado diagnóstico y determinación de las posibles complicaciones [3], pudiendo objetivar la extensión real de la lesión en los tejidos, más allá de lo observable clínicamente, permitiendo realizar de manera urgente un primer desbridamiento quirúrgico cervical suficientemente agresivo para eliminar tejidos desvitalizados y mejorar el estado hemodinámico del paciente [12].

El tratamiento incluye cirugía agresiva, antibioticoterapia y el apoyo sistémico en Unidad de Cuidados Intensivos [3].

El tratamiento quirúrgico temprano es clave para la supervivencia, siendo necesario un alto índice de sospecha en pacientes con eritema e induración de la piel, dolor severo desproporcionado a los hallazgos físicos, sensibilidad a la palpación en áreas no eritematosas, progresión rápida e inestabilidad hemodinámica. La crepitación, vesículas y necrosis cutánea son los signos clínicos más importantes de la fascitis necrotizante cervical [13].

El tratamiento antibiótico debe ser empírico y comenzar ante su sospecha, y ajustado al hemocultivo y antibiograma, siendo una pauta adecuada para la infección por *S. pyogenes* la penicilina más clindamicina. Los antibióticos deben mantenerse hasta que no sea precisa la realización de más

desbridamientos quirúrgicos y el estado hemodinámico del paciente se haya normalizado [4].

El oxígeno hiperbárico ha sido utilizado como tratamiento adyuvante en fascitis necrotizantes desde 1960, sin embargo, existe una ausencia de evidencia de su eficacia basada en estudios clínicos aleatorizados [14].

Los desbridamientos quirúrgicos pueden dejar grandes defectos tisulares que pueden ser difíciles de cerrar incluso con el uso de colgajos o injertos. La terapia de presión negativa VAC (*Vacuum Assisted Closure*) ha demostrado un cierre más rápido de estos tipos de heridas mediante la creación de un microambiente que mejora la perfusión, la migración de fibroblastos, la mitosis y proliferación celular, evacuando el exudado de la herida y controlando la posibilidad de sobreinfección bacteriana [15]. Sin embargo, en casos de fascitis necrotizante de localización cervical existen escasos reportes de su uso en la literatura, no habiéndose encontrado ningún caso en el que se haya utilizado en desbridamientos quirúrgicos cervicales con exposición de estructuras vitales (arteria carótida y vena yugular) como es el de esta paciente [16].

## CONCLUSIONES

La fascitis necrotizante cervical es una entidad rara. Su origen más frecuente son las infecciones odontógenas, pero también hay que sospecharla tras una infección faríngea. Debido a su baja incidencia y alta tasa de mortalidad, el índice de sospecha ante esta enfermedad debe ser alta. En el tratamiento incluye la cirugía agresiva, antibioterapia ajustada a la sensibilidad de los microorganismos y apoyo sistémico en una unidad de cuidados intensivos.

Los sistemas VAC pese a sus beneficios, son infrutilizados, posiblemente por la escasa familiaridad con su uso, la dificultad para su colocación. Consideramos necesaria la realización de estudios aleatorizados del uso de la VAC en fascitis necrotizante cervical, para poder realizar un uso basado en la evidencia en casos como este.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Hua C, Urbina T, Bosc R, Parks T, et al. Necrotizing soft-tissue infections. *Lancet Infect Dis*. 2023; 23:81–94.
2. Hakkarainen TW, Kopari NM, Pham TN, et al. Necrotizing soft tissue infections: Review and current concepts in treatment, systems of care, and outcomes. *Curr Probl Surg*. 2014; 51(8):344–362.
3. Daszenies CS, Rahal ME, Arregui RV. Fascitis necrotizante de cuello. *Re. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello*. 2004; 64:247–251.
4. Stevens DL, Baddour LM. Necrotizing soft tissue infections. *UpToDate*. Waltham. 2022.
5. Martínez AY, McHenry CR, Meneses Rivadeneira L. Fasceítis necrosante cervicofacial: Una infección severa que requiere tratamiento quirúrgico temprano. *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*. 2016; 38(1):23–28.
6. Sandner A, Moritz S, Unverzagt S, Plontke SK, Metz D. Cervical Necrotizing Fasciitis - The Value of the Laboratory Risk Indicator for Necrotizing Fasciitis Score as an Indicative Parameter. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2015; 73(12):2319–2333.
7. Barria T, Abarca A, Cancino M, Chávez C, et al. Fasceítis necrotizante cervical: Consideraciones para el manejo precoz. *Rev. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello*. 2018; 78:294–299.
8. Rodríguez R, Belizario M, Coca RM, Bermúdez L, et al. Fascitis necrotizante cervicofacial de origen odontogénico. *Acta Médica del Centro*. 2022; 16(10):716–723.
9. O'Loughlin RE, Roberson A, Cieslak PR, Lynfield R, Gershman K, Craig A, et al. The epidemiology of invasive group A streptococcal infection and potential vaccine implications: United States, 2000–2004. *Clinical Infectious Diseases*. 2007; 45(7):853–862.
10. Bonne S, Kadri SS. Evaluation and Management of Necrotizing Soft Tissue Infections. *Infect Dis Clin North Am*. 2017; 31(3):497–511.
11. Parra Caballero P, Pérez Esteban S, Patiño Ruiz ME, Castañeda Sanz S, García Vadillo JA. Actualización en fascitis necrotizante. *Semin Fun Esp Reumatol*. 2012; 13(2):41–48.

12. Avanzi RA, Pereira D. M, Kohan Fortuna Figueira SV, Taype Zamboni DR, Barla J, Sancineto CF, et al. Cirugía de conservación y rehabilitación temprana en fascitis necrotizante masiva de miembros inferiores. *Rev Fac Cienc Med Córdoba*. 2022; 79(1):74–77.
13. Martínez A, McHenry C, Meneses L. Fasciitis necrosante cervicofacial: Una infección severa que requiere tratamiento quirúrgico temprano. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac*. 2016; 38(1):23–28.
14. Levett D, Bennett MH, Millar I. Adjunctive hyperbaric oxygen for necrotizing fasciitis. *Cochrane Database of Systematic Reviews*. 2015; 1.
15. Silberstein J, Grabowski J, Parsons JK. Use of a Vacuum-Assisted Device for Fournier's Gangrene: A New Paradigm. *Reviews in urology*. 2008; 10(1):76-80.
16. Dhir K, Reino AJ, Lipana J. Vacuum-Assisted Closure Therapy in the Management of head and Neck Wounds. *Laryngoscope*. 2009; 119(1):54-61.

## TUMOR DE CÉLULAS GRANULARES EN CUERDA VOCAL A PROPÓSITO DE UN CASO

### *Granular cell tumor in the vocal cord: a case-based*

María SAN MILLÁN-GONZÁLEZ ; Jaime SANTOS-PÉREZ ; Victoria DUQUE-HOLGUERA ; María Consolación MARTÍN-PASCUAL ; Patricia VIVEROS-DÍEZ ; Diana Milena SABOYA-ROMERO 

*Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Servicio de Otorrinolaringología. Valladolid. España.*

*Correspondencia: mariasm\_46@hotmail.com*

Fecha de recepción: 21 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: 24 de diciembre 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 tumor de células granulares, es una neoplasia poco común que plantea desafíos en su diagnóstico y tratamiento debido a su potencial de malignización y su variedad clínica. Este artículo revisa un caso clínico de dicho tumor en la cuerda vocal derecha tratado en nuestro servicio y busca resumir la evidencia científica actual sobre esta patología. Método: Se presenta el caso de un varón de 33 años con síntomas de disfonía, odinofagia y hemoptisis, tras la toma de una biopsia fue diagnosticado de tumor de células granulares en la cuerda vocal derecha. Se le realizó una microcirugía endolaríngea y una cordectomía derecha transoral subligamentosa para extirpar el tumor. Se realizaron biopsias y análisis histopatológicos. Resultados: El paciente experimentó una recuperación satisfactoria, sin recidiva del tumor, y una mejora notable en la calidad de su voz después del tratamiento. Discusión: El tumor de células granulares es una neoplasia inusual con preferencia por la región de cabeza y cuello. Puede manifestarse con síntomas como disfonía, estridor y disnea. Se caracteriza por su apariencia macroscópica bien delimitada y por un crecimiento lento. El diagnóstico diferencial es esencial, y los estudios inmunohistoquímicos son útiles para confirmar la presencia de este tumor. Conclusiones: El tratamiento principal de esta neoplasia en las cuerdas vocales consiste en su extirpación quirúrgica, y el seguimiento regular postoperatorio es esencial para evaluar la evolución sintomática y detectar complicaciones. Es importante tener en cuenta la

capacidad potencialmente maligna de estos tumores y su variabilidad clínica, lo que enfatiza la necesidad de una atención cuidadosa y continua en el manejo de esta patología.

PALABRAS CLAVE: Tumor de células granulares; cuerdas vocales.

**SUMMARY:** Introduction and Objectives: Granular cell tumor is a rare neoplasm that poses challenges in its diagnosis and treatment due to its malignant potential and clinical variability. This article reviews a clinical case of granular cell tumor in the right vocal cord treated at our institution and aims to summarize the current scientific evidence on this pathology. Method: We present the case of a 33-year-old male with symptoms of dysphonia, odynophagia, and hemoptysis. Following a biopsy, he was diagnosed with this tumor in the right vocal cord. He underwent endolaryngeal microsurgery and a transoral subligamentous right cordectomy to remove the tumor. Biopsies and histopathological analyses were performed. Results: The patient experienced a satisfactory recovery, with no tumor recurrence, and a significant improvement in voice quality after treatment. Discussion: Granular cell tumor is an uncommon neoplasm that predominantly affects the head and neck region. It may present with symptoms such as dysphonia, stridor, and dyspnea. It is characterized by a well-defined macroscopic appearance and slow growth. Differential diagnosis is essential, and immunohistochemical studies are useful in confirming the presence of this tumor. Conclusions: The primary treatment for this neoplasm in the vocal cords involves surgical excision, and regular postoperative follow-up is essential to assess symptomatic evolution and detect complications. It is important to consider the potentially malignant nature of these tumors and their clinical variability, emphasizing the need for careful and ongoing management of this pathology.

KEYWORDS: Granular cell tumor; vocal cord.

## INTRODUCCIÓN

El tumor de células granulares (TCG), conocido también como tumor de Abrikossoff, es una neoplasia poco frecuente cuya primera descripción en 1926 la realizó el patólogo ruso Alexei Ivanovich Abrikossoff [1]. Este peculiar tumor, caracterizado por su patrón histológico distintivo de células granulares, ha sido objeto de estudio debido a sus características únicas y su variabilidad clínica. Se trata de una patología benigna, pero debido a su potencial de malignización y a su capacidad para afectar una amplia variedad de tejidos y órganos, continúa planteando desafíos en el diagnóstico, pronóstico y tratamiento [2].

Gracias al avance de la medicina personalizada, es fundamental comprender a fondo las características moleculares subyacentes que impulsan la oncogénesis en el tumor de células granulares, con

el objetivo de desarrollar enfoques terapéuticos más efectivos y mejorar la calidad de vida de los pacientes afectados.

Presentamos un caso clínico diagnosticado y tratado en nuestro servicio, que pretende resumir la última evidencia científica en relación con esta patología, y facilitar el manejo de esta enfermedad en las consultas de otorrinolaringología.

## DESCRIPCIÓN

Presentamos el caso de un paciente de 33 años que acudió a nuestro servicio debido a una persistente disfonía y odinofagia de un mes y medio de duración, junto con episodios ocasionales de hemoptisis. El paciente era fumador de más de 10 cigarrillos al día.

Durante la evaluación de la cavidad orofaríngea, se identificó una tumoración papilomatosa

en el polo inferior del pilar amigdalino posterior izquierdo. Además, la nasofibroscofia reveló la presencia de una tumoración vegetante en el tercio posterior de la cuerda vocal derecha (CVD), así como un quiste en el tercio anterior de la cuerda vocal izquierda (CVI). Como consecuencia de estos hallazgos, se realizó una microcirugía endolaringea para proceder a biopsiar las lesiones. En la evaluación diagnóstica del paciente, se obtuvo un resultado histopatológico indicativo de un tumor de Abrikossoff en la CVD, mientras que la biopsia realizada en el pilar posterior de la amígdala izquierda reveló la presencia de un papiloma de células escamosas. Además, se observó la existencia de un quiste epitelial intracordal en la CVI (ver Figuras 1, 2, 3, 4 y 5).

Como parte del tratamiento, el paciente fue sometido a una reintervención para llevar a cabo una cordectomía derecha transoral subligamentosa (Tipo II). El paciente experimentó una recuperación satisfactoria en el período postoperatorio y fue finalmente dado de alta. Tras un seguimiento de un año, se observa la ausencia de recidiva del tumor, y se ha evidenciado una notable mejoría en la calidad de su voz, indicando una evolución favorable del caso.

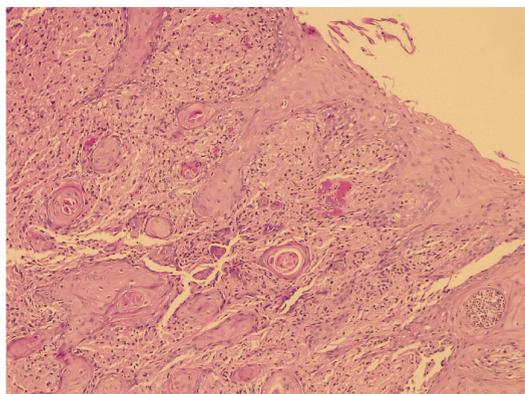


Figura 1. Mucosa laríngea con prominente hiperplasia pseudoepiteliomatosa queratinizante del epitelio escamoso. La lámina propia está ocupada por células granulares. Se ha examinado utilizando tinción con hematoxilina-eosina (HE) y se ha observado bajo un aumento de 100 (X100).

## DISCUSIÓN

El tumor de células granulares (TCG) representa una neoplasia inusual con capacidad de manifestarse en diversas localizaciones anatómicas del organismo. Aproximadamente el 50% de estos tumores asientan en la región de cabeza y cuello [1]. A pesar de que en nuestro caso clínico abordamos a un varón en su treintena, se observa que estos TCG tienen una mayor incidencia en individuos de la

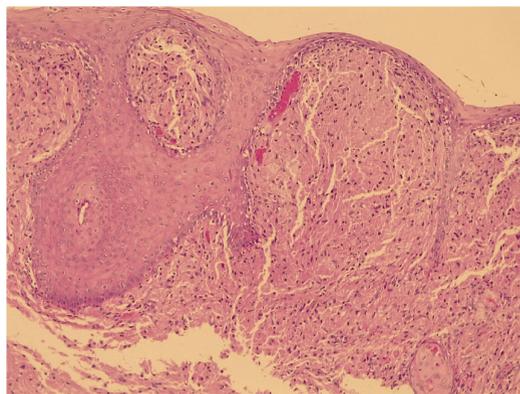


Figura 2. Numerosas células granulares en el tejido conjuntivo subepitelial, con borramiento de su estructura. HEX200.

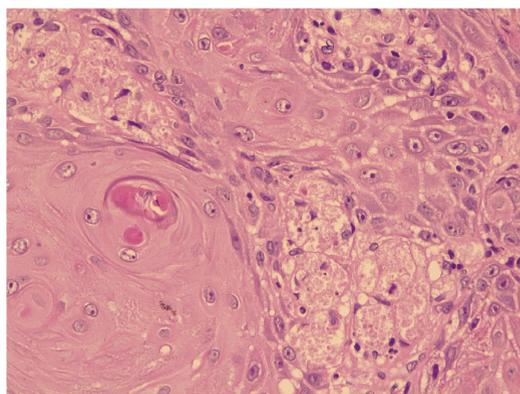


Figura 3. Detalle de las células granulares y el epitelio escamoso con hiperplasia pseudoepiteliomatosa y queratinización (globos córneos). HEX400.

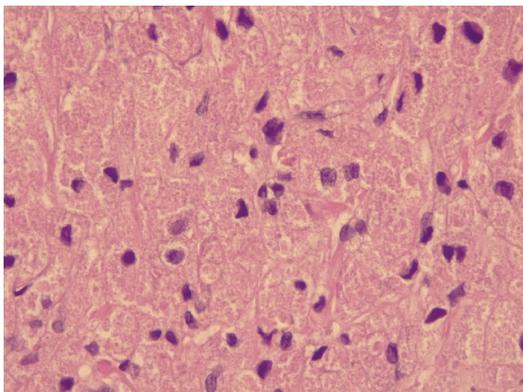


Figura 4. Células granulares positivas para proteína S100. HEX400.

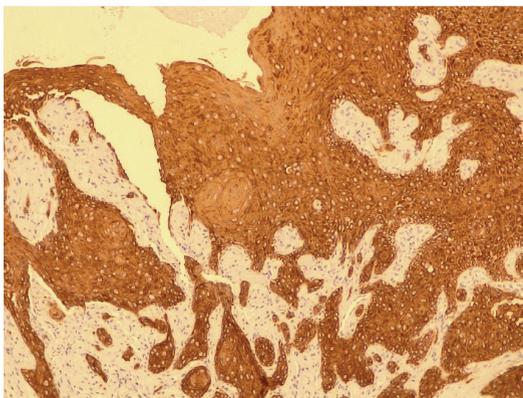


Figura 5. La inmunotinción de Panqueeratina (CKAE1-AE3) destaca el epitelio escamoso.

cuarta a la sexta década de vida, y su prevalencia es más acentuada en el género femenino [2]. A pesar de su crecimiento lento, es imperativo reconocer su capacidad latente para malignizar, lo cual enfatiza la necesidad de una vigilancia meticulosa y un seguimiento continuo [2]. En el ámbito laríngeo, estos tumores se manifiestan con disfonía como manifestación más prevalente (81%), seguida de estridor (23%) y disnea (23%) [1,3,4]. Es pertinente señalar que, en algunos casos, los pacientes refieren tos e intolerancia al ejercicio. También es relevante destacar una mayor incidencia de TCG en pacientes

de ascendencia africana, representando hasta el 60% de todos los casos documentados [5].

Desde una perspectiva macroscópica, estos tumores se caracterizan por su morfología bien delimitada, siendo masas pequeñas, redondeadas, firmes, sésiles, recubiertas por mucosa y con un ritmo de crecimiento lento [6]. A menudo, se confunden con quistes epidermoides, quistes de retención, pólipos de las cuerdas vocales o granulomas [2,6]. A diferencia de los pólipos, los TCG tienden a presentar un aspecto fibroso distintivo [2]. El desarrollo de granulomas puede desencadenarse por agresiones químicas o físicas en la laringe [2].

A nivel microscópico, la caracterización celular de los TCG se manifiesta mediante hiperplasia pseudoepitelial (Figura 1) y ocasionalmente la presencia de mitosis normales, lo que podría conducir a diagnósticos erróneos de carcinoma de células escamosas. Sin embargo, la ausencia de hiperplasia nuclear o pleomorfismo, junto con la presencia de células granulares (imágenes 2, 3, 4 y 5), puede proporcionar indicios clave para distinguir entre estas afecciones [2]. En el caso de nuestro paciente, estas características se evidencian claramente, tal como se ilustra en las mencionadas imágenes. En cuanto a la microscopía, se destacan láminas de células grandes, redondas o poligonales, con citoplasma abundantemente granular y eosinofílico [2,6].

Los estudios inmunohistoquímicos han desvelado la expresión de marcadores específicos en las células de los TCG, incluyendo S-100, vimentina, enolasa específica de neuronas, glicoproteína asociada a la mielina (anticuerpo Leu-7) y CD68 (KP-1), mientras que no expresan marcadores como queratina, desmina, mioglobina y actina específica del músculo [6]. En la Figura 4 podemos observar la positividad a S-100 mostrada en la anatomía patológica de nuestro paciente. La presencia de la proteína/gen WT1 (Wilms-tumor-1) en estos tumores, tal como se destaca en el estudio de Handra-Luca A., respalda su origen neural y

comparte similitudes con otros tumores como los neurofibromas periféricos y los schwannomas [7].

En la práctica clínica, es fundamental realizar diagnósticos diferenciales de los TCG con otros tumores laríngeos, especialmente en situaciones en las que el material de biopsia se encuentra fragmentado. El tratamiento primario para los TCG laríngeos implica la extirpación quirúrgica [1,8-10]. Aunque no existen directrices definitivas a seguir, se han empleado diversas estrategias terapéuticas. En la mayoría de los casos, se opta por abordajes endoscópicos con bisturí frío o láser [8-10]. La extirpación endoscópica con láser de dióxido de carbono se revela como una técnica quirúrgica efectiva y mínimamente invasiva que puede preservar la función de las cuerdas vocales y la calidad de vida de los pacientes [2]. En el ejemplo de Hogan C. et al., se empleó el láser de dióxido de carbono para extirpar el tumor en un niño de once años [10]. Por otro lado, nuestro paciente, debido a la extensión de la lesión en el momento del diagnóstico, se sometió a una cordectomía derecha transoral subligamentosa (Tipo II). La microcirugía, aunque segura, conlleva el riesgo de complicaciones como edema de la laringe o parálisis de las cuerdas vocales [11].

Como se observó en el caso clínico de Reiter R. et al., una revisión a las 2 semanas de la fonocirugía demostró una mejoría significativa en la calidad de la voz y la ronquera [12]. El seguimiento regular se posiciona como un elemento crucial para garantizar la mejoría de la voz y detectar complicaciones o la falta de mejoría clínica [10]. Estas consideraciones y observaciones se traducen en una base sólida que respalda el manejo y diagnóstico de los TCG que afectan las cuerdas vocales.

## CONCLUSIONES

En el contexto del caso clínico atendido en nuestro servicio de un paciente con tumor de células granulares en la cuerda vocal derecha, se destacan las siguientes conclusiones relevantes: El tumor de células granulares es una neoplasia rara,

predominantemente en la región de cabeza y cuello, con hasta un 50% de los casos diagnosticados en esta área anatómica. A pesar de su tendencia a crecer de manera lenta, es fundamental destacar su capacidad de transformación hacia una variante más agresiva, enfatizando la necesidad de una vigilancia continua. Los síntomas más comunes en pacientes con afectación de las cuerdas vocales incluyen disfonía, estridor y disnea. La detección de la proteína/gen WT1 en estos tumores respalda su origen neural. En la práctica clínica, resulta crucial realizar diagnósticos diferenciales con otros tumores laríngeos, especialmente en casos de biopsias fragmentadas. El tratamiento principal de los TCG en las cuerdas vocales implica la extirpación quirúrgica, con seguimiento regular postoperatorio para evaluar la evolución sintomática y detectar posibles complicaciones.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Cura MB, Labeledz G, Degli Uomini L, Palacios Huatuco RM. Granular cell tumor of the vocal cord: Case Report and Literature Review. *Int J Surg Case Rep* [Internet]. 2022;95:107193.
2. Aldokhayel F, Alolaywi A, Alhussin K, Alhudaithi D, Alomar K, Bin Manie M. Pediatric laryngeal granular cell tumor: Case report and literature review. *Ear Nose Throat J* [Internet]. 2023;1455613231202205.
3. Fraser AL, Anthony BP. Granular cell tumor in a 13-year-old girl. *Cureus* [Internet]. 2021; 13(11):e19199.
4. Valldeperes A, Thomas-Arrizabalaga I, Alvarez-Ceballos L, Landa M. Granular Cell Tumors of the Larynx: A Clinicopathologic Study of Five Patients. *J Voice*. 2020;34(6):945-948. <https://orcid.org/10.1016/j.jvoice.2019.04.017>
5. Mur TA, Pellegrini WR, Tracy LF, Levi JR. Laryngeal granular cell tumors in children: A literature review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 2020;138:110193.
6. Sachdeva H, Nirupama M, Padmanabha N, Sreeram S, Lobo FD, Pai R, et al. Histopathological study of benign tumours of the larynx: A

- descriptive study in coastal karnataka. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* [Internet]. 2022; 74(Suppl 2):2019–2023.
7. Handra-Luca A. WT1 Expression in Adult Granular Cell Tumor of the Vocal Cord and Tongue. *Head Neck Pathol.* 2016;10(2):275-277.
  8. Palicelli A, Ramponi A, Valente G, Boldorini R, Balbo Mussetto A, Zanelli M. S-100 Immunohistochemical Positivity in Rhabdomyoma: An Underestimated Potential Diagnostic Pitfall in Routine Practice. *Diagnostics (Basel).* 2022;12(4):892.
  9. Saraydaroglu O, Narter S, Ozsen M, Coskun H. Non-epithelial tumors of the larynx: case series of 12 years. *Eur Arch Otorhinolaryngol* [Internet]. 2019; 276(10):2843–2847.
  10. Hogan C, Acharya V, Tsitsiou Y, Taghi A. Laryngeal granular cell tumour: a very rare diagnosis for a child presenting with hoarse voice in the UK. *BMJ Case Reports.* 2020;13(7):e232851.
  11. Reiter R, Hoffmann T. Phonochirurgie – eine retrospektive Analyse von 400 Eingriffen [Phon microsurgery - a retrospective analysis of 400 cases]. *Laryngorhinootologie.* 2017;96(9):597-606.
  12. Reiter R, Ruess J, Brosch S, Pickhard A. Therapie-refraktäre Heiserkeit bei Granularzelltumor der Stimmlippe [Refractory Hoarseness in Granular Cell Tumor of the Vocal Cord]. *Laryngorhinootologie.* 2016;95(2):125-126.