

ORL

Volumen 17 • Número 1 • 2026

OTORRINOLARINGOLOGÍA
DOCUMENTACIÓN Y METODOLOGÍA DE INVESTIGACIÓN



eISSN: 2444-7986

DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.2026171>

<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 LASSALETTE 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

EDITORIAL

El editor en la revisión por pares: una mirada crítica José Luis PARDAL-REFÓYO	1
---	---

ARTÍCULOS ORIGINALES

Potenciales evocados auditivos de tronco cerebral (PEATC) realizados bajo sedación con melatonina Anastasiya AVDIYUK, Mayte HERRERA, Esther CRISTÓBAL, Sandra M. MARTÍN, Estefanía MIRANDA SÁNCHEZ, Guillermo PLAZA	11
--	----

Tendencias epidemiológicas y evolución diagnóstica del cáncer de orofaringe relacionado con el VPH en un hospital terciario español: un estudio retrospectivo de 12 años Juan Manuel GRANADOS-SITGES, Jose GRANELL-NAVARRO, Isabel FERNÁNDEZ-RASTRILLA, Hernán LÓPEZ-TELLO, Raimundo GUTIERREZ-FONSECA	21
---	----

ARTÍCULOS DE REVISIÓN

Manejo del hemangioma timpánico. Revisión sistemática Jorge BEDIA-GARCÍA, Cristina CORDERO-CIVANTOS, Judit PÉREZ-SAEZ, Luis Arturo RIVAS-SALAS, Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA	27
---	----

Rabdomiosarcoma nasal: estrategias terapéuticas y factores pronósticos. Una revisión sistemática José Carlos REDONDO-BENAVENTE, Jesús Carlos VERGE-GONZÁLEZ, Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ, Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS	37
--	----

CASO CLÍNICO

Hemangioma timpánico: presentación de un caso Jorge BEDIA-GARCÍA, Cristina CORDERO-CIVANTOS, Judit PÉREZ-SAEZ, Luis Arturo RIVAS-SALAS, Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA	49
---	----

TABLE OF CONTENTS

EDITORIAL

The editor in peer review: an analytical perspective José Luis PARDAL-REFOYO	1
---	---

ORIGINAL ARTICLES

Auditory Brainstem Response (ABR) performed under melatonin sedation Anastasiya AVDIYUK, Mayte HERRERA, Esther CRISTÓBAL, Sandra M. MARTÍN, Estefanía MIRANDA SÁNCHEZ, Guillermo PLAZA	11
--	----

Epidemiological trends and diagnostic evolution of HPV-related oropharyngeal cancer in a spanish tertiary center: a 12-year retrospective study Juan Manuel GRANADOS-SITGES, Jose GRANELL-NAVARRO, Isabel FERNÁNDEZ-RASTRILLA, Hernán LÓPEZ-TELLO, Raimundo GUTIERREZ-FONSECA	21
--	----

REVIEW ARTICLES

Timpanic hemangioma management. Systematic review Jorge BEDIA-GARCÍA, Cristina CORDERO-CIVANTOS, Judit PÉREZ-SAEZ, Luis Arturo RIVAS-SALAS, Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA	27
---	----

Nasal rhabdomyosarcoma: therapeutic strategies and prognostic factors. A systematic review José Carlos REDONDO-BENAVENTE, Jesús Carlos VERGE-GONZÁLEZ, Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ, Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS	37
--	----

CASE REPORT

Timpanic hemangioma: a case report Jorge BEDIA-GARCÍA, Cristina CORDERO-CIVANTOS, Judit PÉREZ-SAEZ, Luis Arturo RIVAS-SALAS, Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA	49
--	----

EL EDITOR EN LA REVISIÓN POR PARES: UNA MIRADA CRÍTICA

The editor in peer review: an analytical perspective

José Luis PARDAL-REFOYO 

Director de Revista ORL. Hospital Universitario de Salamanca. Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Universidad de Salamanca. Departamento de Cirugía. Área de Otorrinolaringología / IBSAL (Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca) - Salamanca. España

Correspondencia: jlpardal@usal.es

Fecha de publicación: 11 de marzo de 2026

Fecha de publicación del fascículo: 31 de marzo de 2026

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-SA 4.0. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-CompartirIgual 4.0 Internacional

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

INTRODUCCIÓN

La revisión por pares (RP) es el principal mecanismo de control de calidad de las publicaciones biomédicas. Tradicionalmente, el debate se ha centrado los autores y revisores, pero el papel de los editores suele pasar desapercibido.

El proceso editorial (PE) es complejo y en él podemos identificar puntos clave, cada uno con subprocesos que resumimos en la Tabla 1 (Anexo 1) según los marcos normativos compatibles con los *Principles of Transparency and Best Practice in Scholarly Publishing* [1].

El editor ocupa una posición clave dentro del PE, asumiendo la responsabilidad de tomar

decisiones discrecionales en los diversos puntos de control. Estas decisiones abarcan desde el cribado inicial de los manuscritos hasta la selección e instrucción de los revisores, la síntesis de los informes recibidos, la aplicación de políticas editoriales y la determinación del nivel de transparencia que se adopta durante todo el proceso [2-11].

Distinguimos ocho fases en el PE (Tabla 1, Anexo 1), cada una de ellas vinculada a puntos de control específicos donde el editor ejerce su capacidad de decisión. En estos nodos, el editor influye de manera significativa sobre aspectos como el acceso de los manuscritos a la revisión, el contenido y el enfoque de la evaluación, la decisión final sobre la publicación y la corrección del registro científico.

Entre los puntos de control el editor realiza tareas de verificación ética inicial, cribado editorial, selección e instrucciones dirigidas a los revisores, síntesis de los informes de revisión, determinación del umbral de suficiencia durante las distintas rondas de evaluación y gestión posterior a la publicación. Todo este entramado evidencia que la revisión por pares no es únicamente un proceso delegado a los revisores, sino que se trata de un sistema profundamente mediado por las decisiones del editor.

Esta discrecionalidad editorial, reconocida por las principales organizaciones internacionales dedicadas a la integridad en la edición científica, debe ejercerse bajo los principios de transparencia, coherencia, rendición de cuentas y corrección activa del registro científico. Sin embargo, la aplicación de estos principios todavía muestra variabilidad significativa entre las revistas, lo que pone de manifiesto la necesidad de avanzar hacia una mayor homogeneidad en los estándares editoriales.

Este editorial sintetiza críticamente esa evidencia con un foco en cuatro ejes interrelacionados: aseguramiento de la calidad, ética e integridad, transparencia y dinámicas de poder.

1. PROFESIONALIZACIÓN Y COMPETENCIAS EDITORIALES

Una revisión exploratoria de alcance identificó 1.566 enunciados de competencias para editores científicos de revistas biomédicas, agrupados en dominios que incluyen la evaluación metodológica y estadística, la aplicación de guías de publicación, la gestión del proceso de revisión, el manejo de conflictos de interés y de sospechas de mala conducta, y la comunicación con autores y revisores [2]. Otros trabajos refuerzan la idea de que las funciones del editor exigen un conjunto sofisticado de conocimientos en metodología, ética, gestión editorial y comunicación que rara vez se adquiere mediante formación estructurada y que la mayoría de editores han aprendido con el ejercicio diario en el puesto [6, 11-13].

Editores de distintas disciplinas reconocen retrospectivamente que han debido elevar criterios de calidad, sistematizar el rechazo editorial y reforzar la formalización de la revisión externa debido al aumento del volumen de manuscritos y a las exigencias de transparencia y ciencia abierta [6, 11, 14-17].

2. LOS EDITORES COMO DECISORES ÚLTIMOS

La decisión sobre la publicación de un artículo es del editor con el asesoramiento de los revisores, en esto el consenso es claro [4]. Las decisiones incorporan no solo los informes recibidos de los revisores, sino también el juicio del editor, las respuestas de los autores, la carga de trabajo de la revista, los objetivos estratégicos, el perfil de lectores y las consideraciones del editor jefe o la editorial [4, 9, 11].

Los editores realizan otras funciones, además de las administrativas. Deben valorar la competencia y posibles sesgos de los revisores, resolver discrepancias, solicitar opiniones adicionales y traducir los informes a una carta de decisión que suele seleccionar y jerarquizar los comentarios que se trasladan a los autores [3, 4, 9].

3. PUNTOS DE CONTROL EDITORIAL EN LA REVISIÓN POR PARES

En el PE se identifican varios nodos de control editorial con efectos directos sobre la decisión de publicar un artículo o informe de investigación (Tabla 1, Anexo 1). En estos puntos con frecuencia se cometen errores.

- Cribado inicial y rechazo editorial: los manuscritos pueden ser rechazados en la primera evaluación por el editor sin revisión externa, basándose en juicios sobre novedad, interés para los lectores, adecuación al ámbito de la revista o calidad metodológica percibida [5, 8, 11, 17]. Este proceso suele ser poco transparente

y se realiza con pleno conocimiento de la identidad, afiliación y trayectoria de los autores.

- Selección de revisores: los editores determinan quienes juzgarán el manuscrito. Estudios de caso sobre sistemas de gestión editorial (*Editorial Management Systems, EMS*) muestran que, aunque las plataformas sugieren revisores y monitorizan tiempos, los editores frecuentemente se apartan de las recomendaciones algorítmicas para preservar su propio criterio en la elección de expertos [5, 18].
- Instrucciones a los revisores: un estudio que comparó prioridades de revisores de ensayos clínicos con las tareas que los editores les solicitaban documentó una discordancia notable ya que los revisores consideraron prioritarios la evaluación del riesgo de sesgo, la estadística y la interpretación de resultados, pero solo una minoría de revistas pedía explícitamente valorar el riesgo de sesgo, en cambio, la tarea más enfatizada por las revistas era recomendar la aceptación o rechazo [19]. Entrevistas con editores revelan que, en muchos casos, la orientación a revisores es mínima o muy genérica, bajo la presunción de que ya saben revisar [3, 4].

Estos hallazgos sugieren que lo que los editores piden a los revisores moldea profundamente el contenido de la RP y, por extensión, la calidad metodológica y ética de lo publicado.

4. INTEGRIDAD, CONFLICTOS DE INTERÉS Y AUTOCONTROL INSUFICIENTE

Numerosos artículos normativos sitúan al PE como centinela de integridad, que debería detectar problemas de autoría, plagio, fabricación o falsificación de datos, conflictos de interés no declarados, falta de aprobación ética o de registro de ensayos [20-27]. Se esperaría, por tanto, que los editores contaran con marcos fuertes y fiables para gestionar sus propias fuentes de conflicto.

Sin embargo, un análisis de las políticas de conflictos de interés en 63 revistas de bioética mostró que solo el 19 % disponía de políticas explícitas para editores; la mayoría se centraba en autores, algunas en revisores, y confiaban casi exclusivamente en la declaración voluntaria sin mecanismos claros de gestión o sanción [28].

Un análisis sistemático sobre la autopublicación de editores reveló una gran heterogeneidad en esta conducta, destacando la existencia de revistas con elevados niveles de autopublicación. Aunque la evidencia sobre la falta de rigor en la revisión es escasa, se recomienda que los editores con mayor autoridad se abstengan de publicar en sus propias revistas o cumplan rigurosamente protocolos de transparencia y recusación total al gestionar sus propios trabajos [29].

Diversos ensayos críticos señalan que los editores constituyen un grupo reducido con vínculos personales y profesionales estrechos, lo que podría favorecer prácticas como el amiguismo, el nepotismo o la denominada corrupción editorial en ausencia de declaraciones públicas y detalladas de conflictos de interés editoriales [30-34].

El acoso editorial hace referencia a los comportamientos inapropiados de los editores, como decisiones arbitrarias o la censura de trabajos disidentes, lo que impacta negativamente la integridad y la percepción de justicia en el PE [35].

Se ha argumentado que tanto editoriales como revistas legítimas podrían beneficiarse en términos de prestigio y rentabilidad económica a partir de la publicación de artículos erróneos o incluso fraudulentos, debido al impacto en citaciones, suscripciones y tarifas por procesamiento de artículos (APCs). Esta situación puede generar incentivos insuficientes para la retractación de trabajos problemáticos [36].

5. TRANSPARENCIA, MODELOS DE REVISIÓN Y CIENCIA ABIERTA

El modelo de la RP (simple ciega -los revisores conocen la identidad de los autores-, doble ciega -los

revisores desconocen la identidad de los autores-, abierta -revisores y autores conocen mutuamente sus identidades-) y el grado de apertura (publicación de informes, firmas de revisores, disponibilidad de datos y protocolos) dependen en gran medida de decisiones editoriales y de sus editoriales comerciales o sociedades científicas [7, 26, 27, 37].

Editores de diferentes áreas valoran la RP doble ciega como estándar ético ideal, pero con reservas sobre su viabilidad práctica. Otros prefieren la RP simple ciega por motivos de eficiencia y de selección de revisores, pese al riesgo de sesgos por prestigio institucional o geográfico [3, 4, 37]. La adopción de modelos de revisión abierta y de publicación de informes es desigual y a menudo condicionada por consideraciones de reputación, costes y demanda percibida de autores y lectores [7, 26, 27].

Los principios de transparencia y mejores prácticas en la publicación académica (*Principles of Transparency and Best Practice in Scholarly Publishing*) diseñados por organizaciones como COPE (publicationethics.org), DOAJ (doaj.org), OASPA (oaspa.org) y WAME (wame.org) [1] y otros marcos recomiendan que las revistas detallen quién toma las decisiones finales, qué se revisa y bajo qué modelo, qué tiempos se manejan y qué excepciones existen [27]. Al mismo tiempo, análisis críticos advierten contra la excepcionalidad ética, referido a la proliferación de normas y sellos de buenas prácticas que generan apariencia de integridad sin garantías de cumplimiento efectivo [34, 36].

6. DINÁMICAS DE PODER, SESGO Y EQUIDAD

La literatura revisada nos orienta a que estamos asistiendo a un giro importante de considerar a los editores como árbitros más o menos neutrales a analizarlos como agentes con intereses, capaces tanto de mitigar como de amplificar desigualdades y sesgos [8, 10, 30, 31, 34-36, 38, 39].

A partir de lo expuesto concluimos que la optimización del proceso de RP requiere no solo fortalecer las competencias de los revisores, sino

también incluir mejoras en el ejercicio de los editores. Los hallazgos presentados no desacreditan el sistema de RP y sí ponen en tela de juicio la noción de que la solución radica únicamente en disponer de mejores revisores. La evidencia sugiere que la estructura editorial —definida por quién toma las decisiones, los incentivos que existen y los mecanismos de control establecidos— resulta tan relevante como la calidad de los informes externos.

DISCUSIÓN Y PERSPECTIVAS

IMPLICACIONES PARA LA PRÁCTICA EDITORIAL Y LA CONFIANZA PÚBLICA

Cada decisión editorial —rechazo inicial, elegir determinados revisores, modular el tono de una carta de decisión, demorar o evitar una retractación— tiene consecuencias potenciales sobre qué evidencia se incorpora a guías clínicas, metaanálisis o políticas sanitarias. Escándalos como la publicación y posterior retractación de estudios influyentes con fallos metodológicos graves o datos dudosos han mostrado que los errores editoriales no son meramente procedimentales y que erosionan la confianza social en la ciencia y en las instituciones biomédicas [22, 26, 36, 40].

Si los editores aspiran a mantener su papel como custodios de la credibilidad científica, resulta ineludible reforzar tanto su capacidad técnica como su responsabilidad ética y social.

HACIA UNA FUNCIÓN EDITORIAL BASADA EN DATOS

El análisis de datos generados por los propios sistemas de gestión editorial (tiempos de decisión, patrones de invitación a revisores, tasas de rechazo por tipo de estudio, distribución geográfica de autores) abre la puerta a una verdadera ciencia editorial, en la que las prácticas editoriales se estudien con el mismo rigor que se exige a los autores [5, 7, 41].

Estos datos podrían emplearse para:

- Detectar patrones de sesgo (por país, institución, género, temática).

- Evaluar el impacto de intervenciones (p. ej., formación en riesgo de sesgo, cambios en las instrucciones a revisores, adopción de revisión abierta).
- Monitorizar coherencia y equidad entre editores dentro de una misma revista o grupo editorial.

No obstante, el uso de herramientas algorítmicas para apoyar decisiones (por ejemplo, en la selección de revisores o el cribado inicial) debe ir acompañado de salvaguardas que eviten codificar y amplificar sesgos existentes, manteniendo siempre la responsabilidad última bajo supervisión humana [5, 18, 41].

PROFESIONALIZACIÓN Y CERTIFICACIÓN DE EDITORES

Sobre la base de marcos de competencias ya existentes [2, 11-13], las sociedades científicas y asociaciones de editores podrían desarrollar programas de formación acreditados y certificación que incluyan, además de contenidos metodológicos y de ética contenidos sobre:

- Reconocimiento y mitigación de sesgos cognitivos y estructurales.
- Gestión de conflictos de interés propios y ajenos.
- Comunicación transparente y constructiva con autores y revisores.
- Manejo de conflictos de mala conducta y quejas sobre el comportamiento editorial [20, 30, 31, 34, 35].

Tal profesionalización no eliminará completamente las tensiones inherentes, pero puede reducir la variabilidad entre revistas y dotar a los editores de herramientas para ejercer sus funciones de forma más objetiva y responsable.

GESTIÓN DE LOS CONFLICTOS DE INTERÉS (COI) EDITORIALES

Los datos disponibles justifican adoptar medidas más objetivas y uniformes en materia de

COI editoriales que faciliten una infraestructura de confianza, como pueden ser:

- Declaraciones públicas, detalladas y actualizadas de COI por parte de todos los miembros del equipo editorial, accesibles desde la web de la revista [28, 30-33].
- Protocolos transparentes y auditables para el manejo de manuscritos enviados por editores o miembros del consejo, que incluyan recusación total del autor-editor, designación de un editor externo independiente y, preferiblemente, publicación de una nota sobre el proceso seguido [28, 30-33].
- Mecanismos externos de supervisión, ya sea mediante órganos entre revistas o instancias independientes, capaces de recibir y evaluar quejas sobre comportamientos editoriales abusivos o sistemáticamente sesgados [30, 34, 36].

INTEGRACIÓN DE COMPROMISOS DE DIVERSIDAD, EQUITAD E INCLUSIÓN Y REVISIÓN CRÍTICA DE LOS CRITERIOS DE IMPACTO

Los compromisos recientes en materia de diversidad, equidad e inclusión ofrecen un marco concreto para revisar criterios tradicionales de interés para los lectores o impacto científico, que en la práctica han funcionado a menudo como filtros de exclusión para trabajos de regiones, instituciones o enfoques menos hegemónicos [10, 38, 39]. La equidad debe asumirse como dimensión constitutiva de la calidad y la integridad del corpus biomédico.

Acciones específicas bajo control editorial incluyen:

- Diversificar consejos editoriales y paneles de revisores en términos geográficos, de género, etapa de carrera y orientación metodológica.
- Monitorizar y publicar indicadores de diversidad en autores, revisores y editores.
- Revisar políticas de adecuación temática que puedan estar excluyendo sistemáticamente

problemas relevantes en contextos de renta baja o media.

CONCLUSIONES

Los editores de revistas biomédicas tienen un papel clave en la revisión por pares, aunque han sido poco valorados.

Sus decisiones impactan significativamente, y suelen operar sin criterios estandarizados ni mecanismos homogéneos de responsabilidad explícita.

Para mantener la legitimidad de la revisión por pares, es necesario exigir a los editores los mismos estándares de transparencia y rigor que se aplican a los estudios publicados.

La rendición de cuentas es la obligación de cada participante en el proceso científico y editorial de asumir la responsabilidad por sus acciones, decisiones y contribuciones, garantizando transparencia, justificación y trazabilidad, y aceptando las consecuencias derivadas de posibles errores éticos, metodológicos o procedimentales.

Es necesario definir y requerir una formación y certificación profesional específica para los editores, así como desarrollar sistemas para gestionar conflictos de interés y las autopublicaciones.

Además, es necesario promover una ciencia editorial fundamentada tanto en datos cuantitativos como cualitativos, e integrar la transparencia, la integridad y la diversidad como pilares de la calidad editorial.

En síntesis, quienes supervisan la revisión por pares también deben ser evaluados bajo criterios basados en evidencia y gobernanza estructurada, para asegurar procesos editoriales justos, transparentes y responsables.

Con estas intenciones iniciamos el nuevo año editorial y como siempre agradecemos a los autores, revisores, editores y maquetadores su trabajo orientado a facilitar la difusión de conocimiento en el ámbito de *Revista ORL* e invitamos a quienes quieran colaborar a participar activamente en este proyecto.

BIBLIOGRAFÍA

1. Committee on Publication Ethics (COPE). Principles of transparency and best practice in scholarly publishing [Internet]. COPE; 2022 [citado 18 ene 2026]. Disponible en: <https://publicationethics.org/guidance/guideline/principles-transparency-and-best-practice-scholarly-publishing>
2. Galipeau J, Moher D, Skidmore B, Campbell C, Hendry PJ, Cameron DW, et al. Systematic review of the effectiveness of training programs in writing for scholarly publication, journal editing, and manuscript peer review (protocol). *Syst Rev*. 2013;2:41. <https://doi.org/10.1186/2046-4053-2-41>. PMID: 23773340. PMCID: PMC3691595.
3. Glonti K, Boutron I, Moher D, Hren D. Journal editors' perspectives on the communication practices in biomedical journals: a qualitative study. *BMJ Open*. 2020;10(8):e035600. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2019-035600>. PMID: 32792429. PMCID: PMC7430556.
4. Glonti K, Boutron I, Moher D, Hren D. Journal editors' perspectives on the roles and tasks of peer reviewers in biomedical journals: a qualitative study. *BMJ Open*. 2019;9(11):e033421. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2019-033421>. PMID: 31767597. PMCID: PMC6886905.
5. Hartstein J, Blümel C. Editors between support and control by the digital infrastructure: tracing the peer review process with data from an editorial management system. *Front Res Metr Anal*. 2021;6:747562. <https://doi.org/10.3389/frma.2021.747562>. PMID: 34738050. PMCID: PMC8560710.
6. Gasparyan AY. Peer review in scholarly biomedical journals: a few things that make a big difference. *J Korean Med Sci*. 2013;28(7):970-1. <https://doi.org/10.3346/jkms.2013.28.7.970>. PMID: 23853474. PMCID: PMC3708091.
7. Horbach S, Halfman W. Innovating editorial practices: academic publishers at work. *Res Integr Peer Rev*. 2020;5:12. <https://doi.org/10.1186/s41073-020-00097-w>. PMID: 32774892. PMCID: PMC7404921.
8. Shaw D, Penders B. Gatekeepers of reward: a pilot study on the ethics of editing and

- competing evaluations of value. *J Acad Ethics*. 2018;16(3):211-23. <https://doi.org/10.1007/s10805-018-9305-6>. PMID: 30956629. PMCID: PMC6417389.
9. Newton D. Quality and peer review of research: an adjudicating role for editors. *Account Res*. 2010;17(3):130-45. <https://doi.org/10.1080/08989621003791945>. PMID: 20461569.
 10. Watve M. Behavioral optimization in scientific publishing. *Qeios*. 2023. <https://doi.org/10.32388/8W10ND.2>. PMID: 38274498.
 11. Krapež K. Advancing self-evaluative and self-regulatory mechanisms of scholarly journals: editors' perspectives on what needs to be improved in the editorial process. *Publications*. 2022;10(1):12. <https://doi.org/10.3390/publications10010012>.
 12. Jawaid S, Jawaid M. Professional competencies required for editors of biomedical journals. *Pak J Med Sci*. 2017;33(5):1050-2. <https://doi.org/10.12669/pjms.335.13967>. PMID: 29142536. PMCID: PMC5673705.
 13. Hames I. Peer review at the beginning of the 21st century. *Sci Ed*. 2014;1(1):4-8. <https://doi.org/10.6087/kcse.2014.1.4>.
 14. Martí-Bonmatí L. My experience as editor-in-chief of *Insights into Imaging*. *An RANM*. 2023. <https://doi.org/10.32440/ar.2023.140.01.rev02>.
 15. Mohan C, Singhal M, Verma A. Navigating the editorial gauntlet for excellence in radiology publishing. *Indian J Radiol Imaging*. 2025;35(Suppl):S102-9. <https://doi.org/10.1055/s-0044-1801269>. PMID: 39802704. PMCID: PMC11717447.
 16. Tanwar S. Navigating the seas of publications in a medical journal: the role of an editor. *Cureus*. 2024;16(2):e55233. <https://doi.org/10.7759/cureus.55233>.
 17. Ring J. Scientific publishing: how to select the best articles - a word about transparency. *J Eur Acad Dermatol Venereol*. 2021;35(7):1429-30. <https://doi.org/10.1111/jdv.17300>. PMID: 34004065.
 18. Hesselmann F, Hartstein J. Creating interpretative spaces in and with digital infrastructures: how editors select reviewers at a biomedical publisher. *Sci Technol Hum Values*. 2024;50(1):12-39. <https://doi.org/10.1177/01622439241257720>.
 19. Chauvin A, Ravaud P, Baron G, Barnes C, Boutron I. The most important tasks for peer reviewers evaluating a randomized controlled trial are not congruent with the tasks most often requested by journal editors. *BMC Med*. 2015;13:158. <https://doi.org/10.1186/s12916-015-0395-3>. PMID: 26141137. PMCID: PMC4491236.
 20. Gollogly L, Momen H. Ethical dilemmas in scientific publication: pitfalls and solutions for editors. *Rev Saude Publica*. 2006;40(Spec No):24-9. <https://doi.org/10.1590/S0034-89102006000400004>. PMID: 16924299.
 21. Caellegh AS. Role of the journal editor in sustaining integrity in research. *Acad Med*. 1993;68(9 Suppl):S23-9. <https://doi.org/10.1097/00001888-199309000-00030>. PMID: 8373488.
 22. Marušić A. Importance of ethical publishing in developing countries. *Acta Inform Med*. 2012;20(1):4. <https://doi.org/10.5455/aim.2012.20.4-4>. PMID: 26085711. PMCID: PMC4453634.
 23. CMAJ Editors. Are journals doing enough to prevent fraudulent publication? *Can Med Assoc J*. 2006;174(4):431. <https://doi.org/10.1503/cmaj.060085>. PMID: 16477045. PMCID: PMC1373736.
 24. Illingworth R. Fraud and other misconduct in biomedical research. *Br J Neurosurg*. 2004;18(4):325-8. <https://doi.org/10.1080/02688690400004795>. PMID: 15702828.
 25. Ventura M, Oliveira SC. Integrity and ethics in research and science publication. *Cad Saude Publica*. 2022;38(1):e00283521. <https://doi.org/10.1590/0102-311x00283521>. PMID: 35081206.
 26. Galbraith D. Redrawing the frontiers in the age of post-publication review. *Front Genet*. 2015;6:198. <https://doi.org/10.3389/fgene.2015.00198>. PMID: 26097488. PMCID: PMC4456611.
 27. Huh S. Recent issues in medical journal publishing and editing policies. *Neurointervention*. 2023;18(1):2-8. <https://doi.org/10.5469/>

- neuroint.2023.00115. PMID: 36720475. PMCID: PMC9986353.
28. Master Z, Werner K, Smith EMR, Resnik D, Williams-Jones B. Conflicts of interest policies for authors, peer reviewers, and editors of bioethics journals. *AJOB Empir Bioeth.* 2018;9(4):194-205. <https://doi.org/10.1080/23294515.2018.1510859>. PMID: 30248000. PMCID: PMC6310149.
 29. Helgesson G, Radun I, Radun J, Nilsson G. Editors publishing in their own journals: a systematic review of prevalence and a discussion of normative aspects. *Learn Publ.* 2022;35(2):229-40. <https://doi.org/10.1002/leap.1449>.
 30. Silva JAT, Dobránszki J, Bhar RH, Mehlman C. Editors should declare conflicts of interest. *J Bioeth Inq.* 2019;16(2):279-98. <https://doi.org/10.1007/s11673-019-09908-2>. PMID: 31016681. PMCID: PMC6598958.
 31. Silva JAT. Personal conflicts of interest in the publishing enterprise: focus on journal editors. *Cent Asian J Med Hypotheses Ethics.* 2021;2(1):45-51.
 32. The PLoS Medicine Editors. An unbiased scientific record should be everyone's agenda. *PLoS Med.* 2009;6(2):e1000038. <https://doi.org/10.1371/journal.pmed.1000038>. PMID: 19243217. PMCID: PMC2646782.
 33. The PLoS Medicine Editors. Making sense of non-financial competing interests. *PLOS Med.* 2008;5(9):e199. <https://doi.org/10.1371/journal.pmed.0050199>. PMID: 18828670. PMCID: PMC2553825.
 34. Silva JAT. Ethical exceptionalism: can publishing rules be manipulated to give the impression of ethical publishing? *Bangladesh J Med Sci.* 2017;16(4):610-4. <https://doi.org/10.3329/bjms.v16i4.33623>.
 35. Ajiferuke I, Wakeling S, Javed F, Micheliogiannakis D, Rossouw PE. Editorial bullying: an exploration of acts impacting publication ethics and related environment. *Front Res Metr Anal.* 2024;9:1345553. <https://doi.org/10.3389/frma.2024.1345553>. PMID: 38450043. PMCID: PMC10915017.
 36. Silva JAT, Vuong QH. Do legitimate publishers benefit or profit from error, misconduct or fraud? *Ethics Sci Environ Polit.* 2021;8(3):55-68. <https://doi.org/10.31273/eirj.v8i3.785>.
 37. Karhulahti VM, Backe H. Transparency of peer review: a semi-structured interview study with chief editors from social sciences and humanities. *Res Integr Peer Rev.* 2021;6:14. <https://doi.org/10.1186/s41073-021-00116-4>. PMID: 34789331. PMCID: PMC8598274.
 38. Proctor DM. Nothing about us without us: the roles of diverse stakeholders in scientific publishing. *mBio.* 2023;14(2):e02685-22. <https://doi.org/10.1128/mbio.02685-22>. PMID: 36880759. PMCID: PMC10127632.
 39. Willis M, Carey MR, Foxe JJ, Jones J, Smith N, Vaidya V. Strategies and a checklist for increasing diversity, equity and inclusion in your journal. *Eur J Neurosci.* 2023;58(10):4121-6. <https://doi.org/10.22541/au.168817715.58516327/v1>.
 40. Vale HM, Estofotele C, Pereira AEF, Vale EPBM. Researchers and journals - what are their responsibilities? *Int J Innov Res Multidiscip Educ.* 2024;3(1):15-22.
 41. Baveye P. Objectivity of the peer-review process: enduring myth, reality, and possible remedies. *Learn Publ.* 2021;34(3):435-44. <https://doi.org/10.1002/leap.1414>.
 42. Sha DW. What can and should be done to reduce publication bias? The perspective of an editor. *JAMA.* 1990;263(10):1390-1. <https://doi.org/10.1001/jama.1990.03440100102015>. PMID: 20461569.

ANEXO I

Tabla 1. Fases del proceso editorial (PE) y puntos de control editoriales [3-5,11,12,17,18,20-25,28,30,31,38,42].

Fase del PE	Definición operativa	Punto de control editorial	Decisiones editoriales críticas	Riesgos y fallos documentados
1. Fase de entrada	Comprobaciones para cumplir requisitos formales, administrativos y éticos: COI, aprobación ética, registro y control antiplagio.	Cumplimiento formal y ético	Determinar qué faltas pueden corregirse o requieren rechazo inmediato, así como el grado de exigencia en la revisión ética.	Aplicación desigual de requisitos; confianza excesiva en declaraciones voluntarias; detección tardía de problemas éticos.
2. Cribado editorial	Decidir si enviar el manuscrito a revisión externa o rechazarlo, según su relevancia, originalidad y calidad metodológica.	Acceso al sistema de revisión	Interpretación de novedad e interés; balance entre calidad científica y estrategia editorial.	Opacidad del proceso; sesgos por prestigio, afiliación o procedencia; rechazo no auditado.
3. Selección y encargo de revisores	Identificación, invitación e instrucción de revisores considerando experiencia, conflictos de interés y criterios editoriales.	Quién evalúa el manuscrito	Selección de comunidades epistémicas, recomendaciones algorítmicas y variedad de revisores.	Endogamia disciplinar; redes cerradas; exclusión de perspectivas críticas.
4. Revisión por pares	Revisión externa del manuscrito por expertos según criterios de metodología, resultados, relevancia y ética.	Qué se evalúa (control indirecto)	Especifica las dimensiones a evaluar y destaca la relevancia de la metodología, la estadística y la recomendación final.	Discordancia entre prioridades de revisores y solicitudes editoriales; foco excesivo en aceptación/rechazo.
5. Síntesis editorial y primera decisión	Integración, jerarquización e interpretación de los informes de revisión para emitir la primera decisión editorial.	Traducción del juicio experto	Selección y valoración de comentarios; resolución de discrepancias; importancia del criterio editorial.	Arbitrariedad en la síntesis; falta de trazabilidad entre informes y decisión final.
6. Rondas de revisión y reenvío	Ciclos iterativos de respuesta de autores y reevaluación editorial, con o sin nueva consulta a revisores.	Umbral de suficiencia y persistencia	Determinar si las respuestas bastan, pedir más o enviar a revisión externa.	Inconsistencia intraeditorial; negociación implícita del estándar de calidad; fatiga de autores y revisores.
7. Aceptación y producción	Tras la aceptación, se corrige el estilo, se maquetan, se revisa con pruebas de autor y se publica formalmente con DOI.	Cierre editorial del proceso	Priorización de publicación; gestión de alertas tardías; validación final del registro científico.	Presión por plazos o métricas; problemas al final ignorados.
8. Fase postpublicación	Después de publicar, se realiza la difusión, la revisión posterior y la gestión de correcciones, advertencias o retractaciones.	Corrección del registro científico	Intervenir oportunamente, ser transparente y manejar conflictos de reputación.	Incentivos insuficientes para retractar; retrasos; impacto negativo en la confianza pública.

ARTÍCULO ORIGINAL

POTENCIALES EVOCADOS AUDITIVOS DE TRONCO CEREBRAL (PEATC) REALIZADOS BAJO SEDACIÓN CON MELATONINA

Auditory Brainstem Response (ABR) performed under melatonin sedation

Anastasiya AVDIYUK ; Mayte HERRERA ; Esther CRISTÓBAL; Sandra M. MARTÍN; Estefanía MIRANDA SÁNCHEZ ; Guillermo PLAZA 

Hospital Universitario de Fuenlabrada. Servicio de Otorrinolaringología. Fuenlabrada. Madrid. España

Correspondencia: gplaza.hflr@salud.madrid.org

Fecha de recepción: 23 de agosto de 2025

Fecha de aceptación: 29 de noviembre de 2025

Fecha de publicación: 6 de diciembre de 2025

Fecha de publicación del fascículo: 31 de marzo de 2026

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

Imágenes: No se han incluido imágenes de pacientes en el presente estudio

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

Licencia CC BY-NC-SA. Licencia Creative Commons Atribución/Reconocimiento-NoComercial-CompartirIgual 4.0 Internacional

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

RESUMEN: Introducción y objetivo: Los potenciales evocados auditivos del tronco cerebral (PEATC) permiten un estudio detallado de la función de la vía auditiva comprendida entre el nervio auditivo y el tronco del encéfalo. Se utilizan principalmente en la población pediátrica. Para su realización, es necesario que el paciente permanezca inmóvil y relajado a fin de evitar distorsión en los resultados. Clásicamente, en la población pediátrica se han llevado a cabo mediante sueño fisiológico. No obstante, al constatar la importancia de la tranquilidad del paciente de cara a la viabilidad de la prueba, no siempre alcanzable en este grupo etario, se desarrollaron técnicas alternativas como son el empleo de preparados con melatonina o la sedación en el quirófano. El objetivo principal del presente estudio fue evaluar la eficacia de la melatonina para la sedación durante los PEATC en pacientes pediátricos con sospecha de hipoacusia. Método: Se llevó a cabo un estudio observacional, descriptivo-analítico, retrospectivo y longitudinal con pacientes pediátricos en los que se realizaron PEATC bajo sedación con melatonina entre finales de 2021 y 2023. Resultados: Se incluyeron un total de 83 pacientes siendo la edad media $2,7 \pm 1,48$ años, siendo un 69,9 % varones. En un 77,1 % se realizó la prueba debido a la presencia de retraso del lenguaje. En un 33,7 % se realizaron como cribado auditivo en pacientes

con trastorno del espectro autista (TEA). El 96,4 % había pasado el cribado auditivo neonatal. La dosis total media del jarabe con melatonina administrado para realizar la prueba fue de $1,88 \pm 1,5$ ml. Ningún paciente presentó efectos adversos. Sólo 8 pacientes (9,6 %) tuvieron que realizarse la prueba posteriormente bajo sedación profunda. Finalmente, un total de 6 pacientes (7,2 %) de la muestra estudiada fueron diagnosticados de hipoacusia. Salvo el motivo para la realización de la prueba ($p < 0,01$) y el resultado del cribado auditivo ($p = 0,013$), el resto de las variables no mostraron diferencias estadísticamente significativas entre los pacientes con hipoacusia y aquellos que no la padecían. Conclusiones: Los PEATC con melatonina suponen un método seguro y eficaz para el diagnóstico de hipoacusia en población pediátrica.

PALABRAS CLAVE: potenciales evocados auditivos de tronco cerebral; PEATC; hipoacusia infantil; melatonina

SUMMARY: Introduction and objective: Auditory brainstem response (ABR) testing allows for a detailed study of the auditory pathway between the auditory nerve and the brainstem. It is mainly used in pediatric populations. For a proper execution, it is necessary for the patient to remain still and relaxed to avoid distortion of the results. Traditionally, in pediatric populations, this test has been performed during physiological sleep. However, sometimes alternative techniques are required, such as the use of melatonin-based preparations or sedation to carry out ABR in children. The main objective of this study was to evaluate the execution of ABR testing with melatonin in pediatric patients. Method: An observational, descriptive-analytical, retrospective, and longitudinal study was conducted with pediatric patients who underwent ABR testing under sedation with melatonin between 2021 and 2023. Results: A total of 83 patients were included, with a mean age of 2.7 ± 1.48 years, and 69.9 % were male. In 77.1 %, the test was performed due to the presence of language delay. In 33.7 % of cases, hearing screening was performed in patients with autism spectrum disorder (ASD). 96.4 % passed the neonatal hearing screening. The average total dose of melatonin syrup administered to perform the test was 1.88 ± 1.5 ml. No patients experienced adverse effects. Only 8 patients (9.6 %) had to undergo ABR testing subsequently under deep sedation. Finally, a total of 6 patients (7.2 %) were diagnosed with hearing loss. Except for the reason for conducting the test ($p < 0.01$) and the auditory screening result ($p = 0.013$), the other variables showed no statistically significant differences between patients with hearing loss and those without. Conclusions: ABR testing with melatonin is a safe and effective method for diagnosing hearing loss in pediatric populations.

KEYWORDS: brainstem auditory evoked potentials; BAEP; pediatric hearing loss; melatonin

INTRODUCCIÓN

En el paciente pediátrico es ampliamente conocido el impacto negativo en el desarrollo del lenguaje que pudiera venir condicionado por un retraso en el diagnóstico de la hipoacusia neonatal. Dicha situación genera una gran repercusión sobre el desarrollo emocional, social y cognitivo del paciente [1]. Así mismo, es de gran importancia teniendo en cuenta que la hipoacusia neonatal

tiene una prevalencia de 1,5-6 casos por cada 1 000 nacidos vivos en España [2].

Los potenciales evocados auditivos del tronco cerebral (PEATC) constituyen una forma de evaluación objetiva y detallada de la función de la vía auditiva comprendida entre el nervio auditivo y el tronco del encéfalo. Para ello, se estudia el umbral auditivo en frecuencias comprendidas entre los 2 000-8 000 dB HL en respuesta a estímulos sonoros

tipo clic, analizando el registro de las cinco ondas representativas de regiones concretas de la vía auditiva [3]. Una de sus principales ventajas reside en la falta de necesidad de colaboración por parte del paciente. Se trata de una técnica principalmente utilizada en población pediátrica, además de en aquellos pacientes fuera de dicho periodo etario que tengan algún problema a la hora de realizar una audiometría tonal de manera colaborativa [4]. Para la ejecución de esta, es necesario que el paciente permanezca inmóvil y lo más relajado posible con el objetivo de evitar la generación de interferencias y, por tanto, la distorsión de los resultados del estudio [5]. Clásicamente, en la población pediátrica, se ha llevado a cabo intentando conseguir el sueño fisiológico. No obstante, al constatar la importancia de la tranquilidad del paciente de cara a la viabilidad de la prueba, no siempre alcanzable en pacientes pediátricos, se desarrollaron técnicas alternativas para su realización como son el empleo de preparados con contenido en melatonina o el empleo de sedación en el quirófano [6].

La realización de dicha prueba mediante la administración de preparados con melatonina permite la ejecución de esta evitando los efectos secundarios asociados al uso de medicación sedante empleada en el quirófano como pueden ser la presencia de vómitos, *rash* cutáneo o depresión respiratoria, entre otros [5].

La melatonina es una hormona producida a nivel de la glándula pineal y regula el ritmo circadiano a través de su efecto en el núcleo supraquiasmático. En la población pediátrica, su uso está extendido al tratamiento de distintos trastornos neurológicos, trastorno del espectro autista (TEA), síndrome de la fase retardada del sueño y disomnias, entre otros [7, 8].

Diversos estudios han descrito su seguridad durante la realización de procedimientos diagnósticos tales como electroencefalograma (EEG) o resonancia magnética nuclear (RM), ya que no se han evidenciado efectos adversos asociados a su empleo [6, 7].

Así mismo, el uso de dicha sustancia no genera artefactos sobre las ondas obtenidas como resultado tras la realización de los PEATC. Es por ello, que se considera un método seguro y efectivo para el estudio de hipoacusia en pacientes pediátricos o adultos no colaboradores [4, 9].

El objetivo principal del presente estudio fue evaluar la eficacia de la melatonina para la sedación durante los PEATC en pacientes pediátricos con sospecha de hipoacusia.

MATERIAL Y MÉTODO

Una vez aprobado por el Comité de Ética de la Investigación con Medicamentos (CEIm) de nuestro hospital con código (25/16), se llevó a cabo un estudio observacional, descriptivo-analítico, retrospectivo con pacientes pediátricos sometidos en nuestro centro a estudio auditivo mediante la realización de PEATC previa administración de melatonina ante la sospecha de hipoacusia en el periodo de tiempo comprendido entre finales de 2021 y 2023.

En cuanto a la dosis de dicho preparado, se administraron a pacientes pediátricos como norma general 0,2 mg/kg, salvo en el caso de que el paciente presentara TEA, administrándose 0,3 mg/kg. Los padres o tutores legales de los pacientes firmaron un consentimiento informado con anterioridad.

Como instrucciones previas, debían levantar a su hijo a las 7:00 h, debiendo llegar despierto al hospital 30 minutos antes de su cita a las 8:00h. Así mismo, debían traer de casa su desayuno para tomarlo con la primera dosis del jarabe. El paciente podía abandonar el hospital sin necesidad de vigilancia específica en el centro, debiendo estar acompañado con un adulto responsable durante las 5 horas posteriores y no pudiendo realizar actividades cuyo estado de somnolencia supusiera un riesgo para el paciente o los demás.

La prueba se realizó de manera ambulatoria, en una sala insonorizada y aislada destinada para ello en nuestro centro.

En el caso de que los resultados no fueran concluyentes tras un primer intento y, administrando para ello hasta dos dosis del jarabe con melatonina separadas 20 minutos, se llevaba a cabo un segundo PEATC, en la mayoría de las ocasiones a los 2 meses del primero. Si la realización de la prueba volvía a fracasar, se indicaba la derivación a otro centro para la ejecución de esta mediante sedación en el quirófano. La prueba se consideró como exitosa siempre y cuando se pudiera completar el estudio del umbral auditivo en todas las frecuencias evaluadas.

En todos los casos en los que se detectó hipoacusia mediante PEATC, el estudio diagnóstico se completó con pruebas audiológicas complementarias. Además de las exploraciones objetivas, se realizaron pruebas subjetivas conductuales apropiadas para la edad, tales como audiometría verbal con palabras sencillas. Asimismo, en todos estos pacientes se llevó a cabo un estudio adicional mediante Potenciales Evocados Auditivos de Estado Estable (PEAEE), con el fin de obtener una estimación más precisa de los umbrales tonales.

En la actualidad, en nuestro centro aún no se encuentra instaurada la realización de PEAEE bajo administración de melatonina. La principal ventaja del PEATC en nuestra práctica clínica radica en su elevada reproducibilidad y estabilidad de registro. Dado que el equipo de PEATC disponible presentaba problemas de descalibración cuando se trasladaba al quirófano y ante la ausencia de una UCI pediátrica en nuestro hospital, se inició la derivación de pacientes pediátricos a un centro especializado para la realización de PEATC con melatonina en condiciones óptimas de sedación fisiológica y seguridad clínica.

Los criterios de inclusión en el estudio establecidos fueron pacientes de edad pediátrica con sospecha de hipoacusia con imposibilidad para su colaboración en la realización de una audiometría conductual y la realización de dicha prueba diagnóstica en nuestro centro.

Para la consideración de un PEATC como patológico se aplicaron los criterios audiológicos estándar, valorando de forma conjunta la morfología del trazado, el aumento de las latencias absolutas y relativas, la conformación de las diferentes ondas y la coherencia en su secuencia. Aunque se empleó la onda V como referencia principal debido a su elevada estabilidad y reproducibilidad, su presencia o ausencia no constituyó el único parámetro de análisis. Se registró la intensidad mínima a la que emergía, así como las variaciones de su latencia en función del nivel de estímulo. Este abordaje permitió identificar alteraciones compatibles con distintos grados de hipoacusia y no únicamente con pérdidas profundas.

El análisis de los datos obtenidos se llevó a cabo empleando el programa estadístico SPSS. Se realizó un análisis estadístico de variables demográficas, así como, del motivo para la realización de la prueba, presencia de TEA, la superación de la prueba de cribado auditivo, la dosis total administrada del preparado con melatonina y el diagnóstico de hipoacusia.

Con respecto al análisis descriptivo de las variables cualitativas, se realizó la frecuencia absoluta y el porcentaje. Para el análisis descriptivo de las variables cuantitativas, se empleó la media aritmética y la desviación estándar. Para determinar la relación existente entre el diagnóstico de hipoacusia y el resto de las variables, se llevó a cabo un análisis bivariado. En el caso de que las variables independientes fueran cualitativas, se empleó la prueba Chi cuadrado o la prueba exacta de Fisher, al tratarse de pruebas no paramétricas y al ser las muestras independientes. Para el análisis bivariado de las variables cuantitativas, se empleó la prueba t de Student para muestras independientes o la prueba U de Mann Whitney, en función de que la variable siguiera o no una distribución normal, respectivamente.

Se consideró un resultado estadísticamente significativo en el caso de que el p-valor obtenido fuera menor de 0,05.

RESULTADOS

Se incluyeron un total de 83 pacientes con edades comprendidas entre 1 y 11 años, siendo la edad media $2,7 \pm 1,48$ años. Un 69,9 % de la muestra estaba representada por varones. El motivo por el cual se realizó esta prueba diagnóstica con más frecuencia fue la presencia de retraso del lenguaje, hallada en un 77,1 % de los casos. El 33,7 % de los pacientes incluidos presentaban TEA dado que en su protocolo de seguimiento actual se incluye un estudio auditivo. El 96,4 % pasó la prueba de cribado auditivo neonatal. En cuanto a la dosis total empleada del preparado con melatonina para realizar la prueba, la media fue de $1,88 \pm 1,5$ ml (siendo el mínimo empleado 1,1 ml). El tiempo medio de latencia del sueño tras la administración de dicho jarabe fue de 32 ± 10 minutos. La duración media del estudio fue de 45 ± 18 minutos, consiguiendo en la mayoría de los casos un sueño de buena calidad y continuo. Sólo 8 pacientes (9,6 %) requirieron de la repetición de la prueba bajo sedación profunda en un centro de referencia. Un total de 6 pacientes (7,2 %) de la muestra estudiada fueron diagnosticados de hipoacusia (Figura 1).

Las características sociodemográficas tanto de los pacientes que fueron diagnosticados de hipoacusia como de aquellos que no lo fueron, se muestran en la Tabla 1.

Tabla 1. Características sociodemográficas de los pacientes incluidos en el estudio

Variable	Total (n= 83)	Hipoacusia (n= 6)	No hipoacusia (n= 77)	p-valor
Sexo (n, %)				
Mujeres	25 (30,1 %)	4 (66,7 %)	21 (27,3 %)	0,064
Varones	58 (69,9 %)	2 (33,3 %)	56 (72,7 %)	
Edad media (años $\pm$ DE)	$2,7 \pm 1,48$	$3 \pm 2,53$	$2,66 \pm 1,39$	0,106

El grupo de pacientes con hipoacusia presentó un componente mayoritario de mujeres (66,7 %) y la edad media fue de $3 \pm 2,53$ años, todas ellas cifras superiores al grupo de pacientes no diagnosticados de hipoacusia. Dichas variables no mostraron diferencias estadísticamente significativas.

Dentro del grupo de pacientes con hipoacusia, los tres motivos más frecuentes para la realización de dicha prueba fueron la presencia de retraso del lenguaje, sospecha de hipoacusia y pacientes que no pasaron el cribado neonatal de hipoacusia, cada una en un 33,3 % de los pacientes, respectivamente. Un 66,7 % pasó dicho cribado auditivo y 2 pacientes fueron diagnosticados de TEA (33,3 %), uno de ellos posteriormente a la realización de la prueba auditiva. Ninguna otra comorbilidad que pudiera dificultar la realización del estudio y limitar la tasa de éxito en

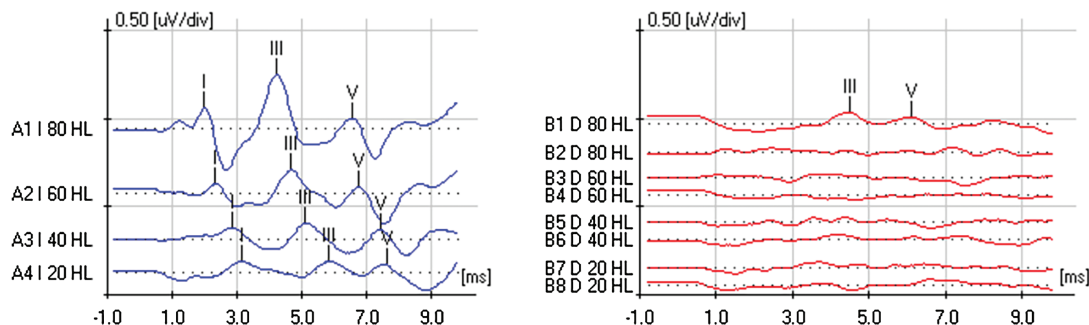


Figura 1. Resultado de los PEATC de un paciente diagnosticado de hipoacusia del oído derecho

la obtención de resultados fue descrita en el grupo de pacientes estudiado. En cuanto a los aspectos técnicos de la prueba diagnóstica, la media de la dosis total empleada fue de $2,33 \pm 0,755$ ml, un 66,7 % se durmió en el primer intento, un 16,7 % de los pacientes tuvo que repetir la prueba en una segunda ocasión y un 16,7 % requirió de la realización de la prueba bajo condiciones de sedación (Tabla 2).

intranquilidad y movimiento constante, su estado neurológico o la presencia de fiebre o fatiga, entre otros. Así mismo, varios artefactos pueden verse registrados durante la realización de las pruebas como son los movimientos oculares o los tics corporales, entre otros. Por ello, es esencial un conocimiento profundo de estas variables para garantizar la validez diagnóstica de la prueba [10].

Tabla 2. Características de los pacientes diagnosticados de hipoacusia tras la realización de PEATC. PEATC: potenciales evocados auditivos del tronco cerebral

Caso	Edad	Sexo	Motivo	TEA	cribado auditivo	Repetición prueba	Dosis total administrada (ml)	Derivado para sedación
1	1 a	v	no superó cribado	sí	no superado	no	1,2	no
2	2 a	m	sospecha hipoacusia	no	superado	no	3	sí
3	8 a	v	sospecha hipoacusia	sí	superado	no	3,2	no
4	2 a	m	retraso lenguaje	no	superado	no	1,8	no
5	3 m	m	no superó cribado	no	no superado	no	2,2	no
6	2 a	m	retraso lenguaje	no	superado	no	2,6	no

m: meses, a: años/ v: varón, m: mujer/ TEA: trastorno del espectro autista/ ml: mililitros

Salvo el motivo para la realización de la prueba ($p<0,01$) y el resultado del cribado auditivo neonatal ($p=0,013$), el resto de las variables no mostraron diferencias estadísticamente significativas entre los pacientes con hipoacusia y aquellos que no la padecían. No se reportaron efectos adversos en los pacientes debido a la administración del preparado con melatonina.

DISCUSIÓN

Los PEATC suponen una herramienta objetiva para confirmar la sospecha de hipoacusia [2]. Para su realización, es preciso que el paciente permanezca en reposo, ya que el movimiento y la agitación alteran la calidad de los registros obtenidos [5]. Existen varios aspectos clínicos que pueden interferir en la interpretación de los resultados como son las posibles interferencias del entorno, representadas fundamentalmente por el ruido, o las características del propio paciente como son su

Existen varios métodos para facilitar la realización de los PEATC en pacientes pediátricos o no colaboradores. Entre ellos se incluyen el sueño fisiológico, el uso de melatonina o la sedación farmacológica, esta última comúnmente realizada en el quirófano empleando para ello fármacos como el hidrato de cloral, el propofol, pentobarbital rectal o ketamina, entre otros. Sin embargo, la sedación implica riesgos significativos, incluyendo efectos secundarios como náuseas, vómitos, mareo, letargia, e incluso complicaciones graves como depresión respiratoria o fallecimiento [6, 11].

Por este motivo, se han explorado alternativas más seguras y eficaces para su ejecución, como el empleo de melatonina. El estudio de Seabra et al. evidenció una ausencia de efectos adversos tras la administración de 10 mg de melatonina durante 28 días en comparación con el grupo placebo [12]. Así mismo, series como las de Guerlain et al. respaldan su uso en pacientes con trastornos del neurodesarrollo [13, 14].

La eficacia de la melatonina ha sido comparable a la de fármacos sedantes como el clorhidrato de cloral, tal y como describen series como la de Hajij et al. o Casteil et al [4, 5]. Y su aplicación se ha extendido a procedimientos como la resonancia magnética nuclear o el electroencefalograma, tal y como apuntan estudios como los de Picone et al [15]. Incluso en modelos animales, como el estudio de Revuelta et al. en ratas con encefalopatía hipóxico-isquémica, se ha observado un efecto neuroprotector asociado a la melatonina, con recuperación de las latencias de las ondas en PEATC y disminución del daño morfológico en el colículo inferior [16].

El porcentaje de éxito para la realización de la prueba de PEATC previa administración de melatonina es variable (65-87 %) [17]. Casteil et al. describe una tasa de éxito en su realización en un grupo conformado por 29 pacientes del 65 % [4]. No obstante, dicha tasa es mayor en estudios como el realizado por Hajij et al. o por Schmidt et al., en los que alcanzan un 83,3 % y 87 %, respectivamente [5, 9].

Linnebjerg et al. realizó un estudio en el cuál comparó un grupo de 127 pacientes en los que se realizaron PEATC o potenciales evocados auditivos de estado estable (PEAee) frente a un grupo control. El porcentaje de éxito obtenido fue de 71,7 % y 51,3 % respectivamente, constatando su mayor eficacia para la consecución de una prueba auditiva realizada satisfactoriamente [18].

El grupo de Della Volpe et al. demostró la superioridad de los preparados con melatonina, triptófano y vitamina B6 frente al uso de la melatonina de manera aislada al reducir el número de veces que debe ser repetida la prueba de los PEATC [19]. En otro estudio llevado a cabo por el mismo grupo de autores, incluso se apuntaba hacia el beneficio de premedicar a los pacientes con una dosis de 1,5 ml de Melamil Tripto® una semana antes de realizar la prueba, ya que permite disminuir la dosis necesaria a administrar inmediatamente antes de la misma [20].

Los datos del presente estudio son coherentes con la literatura: se logró completar la prueba en un primer intento en un 59 % de los pacientes, aumentando a un 73,8 % tras un segundo intento. Consiguiendo de esta manera que únicamente 8 pacientes (un 9,6 %) tuvieran que ser derivados para sedación profunda. Finalmente, 6 pacientes fueron diagnosticados de hipoacusia, lo que supone un 7,2 % del total de la muestra y un 75 % de los pacientes sometidos a sedación. Estos resultados refuerzan la recomendación de realizar los PEATC en salas insonorizadas y adaptadas, lo cual reduce el coste económico y el impacto emocional para el paciente y su familia, como también sugiere Casteil et al [4].

Entre las principales limitaciones del estudio se encuentra su carácter descriptivo y la ausencia de un grupo control, lo cual impide establecer relaciones causales. Para confirmar la eficacia de la melatonina en este contexto, serían necesarios estudios con grupo control que permitieran obtener conclusiones más sólidas y generalizables.

CONCLUSIONES

Los PEATC realizados bajo la administración de compuestos con melatonina suponen un método seguro y eficaz para el diagnóstico de hipoacusia en la población pediátrica. Esto permite la reducción del número de pacientes que deben ser sometidos a sedación en condiciones controladas en el quirófano para la ejecución de la prueba.

BIBLIOGRAFÍA

1. Shearer AE, Shen J, Amr S, Morton CC, Smith RJ. A proposal for comprehensive newborn hearing screening to improve identification of deaf and hard-of-hearing children. *Gen Med.* 2019; 21(11): 2614-2630. <https://doi.org/10.1038/s41436-019-0563-5>
2. Delgado Domínguez JJ. Detección precoz de la hipoacusia infantil. *Rev Pediatr Aten Primaria.* 2011;13(50):279-297. <https://doi.org/10.4321/S1139-76322011000200012>

3. Rouillon I, Parodi M, Denoyelle F, Loundon N. How to perform ABR in young children. *Eur. Ann. Otorhinolaryngol. Head Neck Dis.* 2016; 133(6): 431-435. <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2016.05.004>
4. Casteil I, Viquesnel A, Favier V, Guignard N, Blanchet C, Mondain M. Study of the efficacy of melatonin for auditory brainstem response (ABR) testing in children. *Eur Ann of Otorhinolaryngol, Head Neck Dis.* 2017; 134(6): 373-375. <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2017.03.006>
5. Hajjij A, Tahiri I, Anajar S, Essaadi M, Snoussi K. Melatonin is useful alternative for sedation in children undergoing auditory brainstem responses testing. *Eur J Pediatr.* 2020; 179(9): 1431-1434. <https://doi.org/10.1007/s00431-020-03632-5>
6. Struijk C, van der Poel N, Blommaerts I, Boiy T, Hofkens-Van Den Brandt A, Van Den Brande K et al. The use of melatonin for auditory brainstem response audiometry in children with comorbidities. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2021; 279(5): 2303-2308. <https://doi.org/10.1007/s00405-021-06923-1>
7. Sánchez-Barceló EJ, Mediavilla MD, Reiter RJ. Clinical uses of melatonin in pediatrics. *Int J Pediatr.* 2011;892624. <https://doi.org/10.1155/2011/892624>
8. Bruni O, Alonso-Alconada D, Besag F, Biran V, Braam W, Cortese S et al. Current role of melatonin in pediatric neurology: Clinical recommendations. *Eur J Paediatr Neurol.* 2015; 19(2): 122-133. <https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2014.12.007>
9. Schmidt C-M, Knief A, Deuster D, Matulat P, am Zehnhoff-Dinnesen AG Melatonin is a useful alternative to sedation in children undergoing brainstem audiometry with an age dependent success rate—a field report of 250 investigations. *Neuropediatrics.* 2007; 38(1):2-4. <https://doi.org/10.1055/s-2007-981467>
10. Stoody TM, Athcherson SR. Basic Instrumentation, Acquisition, and Recording Considerations. *Auditory Electrophysiology.* Second Edition. New York: Thieme; 2024. p.7-20.
11. Levit Y, Mandel D, Matot I. Frequency-specific auditory brainstem response testing with age-appropriate sedation. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2018; 108: 73-79. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2018.02.028>
12. de Seabra M, LV, Bignotto M, Pinto LR Jr, Tufik S. Randomized, double-blind clinical trial, controlled with placebo, of the toxicology of chronic melatonin treatment. *J Pineal Res.* 2000; 29(4):193-200. <https://doi.org/10.1034/j.1600-0633.2002.290401.x>
13. Guerlain J, Paul A, Rouillon I, Parodi M, Garabedian EN, Loundon N. Efficiency of Melatonin as Compared to Pentobarbital for Audiometry Brainstem Response in Children With Associated Disorders. *Am J Audiol.* 2016; 25(3): 206-210. https://doi.org/10.1044/2016_AJA-15-0075
14. Yuge K, Nagamitsu S, Ishikawa Y, Hamada I, Takahashi H, Sugioka H et al. Long-term melatonin treatment for the sleep problems and aberrant behaviors of children with neurodevelopmental disorders. *BMC Psychiatry.* 2020; 20(1): 445. <https://doi.org/10.1186/s12888-020-02847-y>
15. Picone S, Ariganello P, Mondì V, Di Palma F Di, Martini L, Marziali et al. A solution based on melatonin, tryptophan and vitamin B6 (Melamil Tripto©) for sedation in newborn during brain MRI. *Ital J Pediatr.* 2019; 45(1): 122. <https://doi.org/10.1186/s13052-019-0714-y>
16. Revuelta M, Arteaga O, Montalvo H, Alvarez A, Hilario E, Martinez-Ibargüen A. Antioxidant Treatments Recover the Alteration of Auditory-Evoked Potentials and Reduce Morphological Damage in the Inferior Colliculus after Perinatal Asphyxia in Rat. *Brain Pathol.* 2016; 26(2): 186-198. <https://doi.org/10.1111/bpa.12272>
17. Behrman DB, Bishop JL, Godshell J, Shirley B, Storey S, Carroll WW, Prosser JD. Efficacy of melatonin for auditory brainstem response testing in children: A systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2020 [consultado junio 2025]; 131: 109861. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2020.109861>
18. Linnebjerg LB, Wetke R. Melatonin in children undergoing auditory brainstem response and auditory steady state response tests. *Hear Balance Commun.* 2013 [consultado junio 2025];11(4): 208-213. <https://doi.org/10.3109/21695717.2013.855478>

19. Della Volpe A, De Lucia A, Pirozzi C, Pastore V. Comparative Study between the use of Melatonin and A Solution with Melatonin, Tryptophan, and Vitamin B6 as an Inducer of Spontaneous Sleep in Children During an Auditory Response Test: An Alternative to Commonly Used Sedative Drugs. *J Int Adv Otol.* 2017; 13(1), 69-73. <https://doi.org/10.5152/iao.2017.3054>
20. Della Volpe A, Dipietro L, Ricci G, Pastore V, Paccone M, Pirozzi C, Di Stadio A. Pre-treatment with MELAMIL TRIPTO induces sleep in children undergoing Auditory brain Response (ABR) testing. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2018 [consultado junio 2025]; 115: 171-174. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2018.10.006>

ORIGINAL ARTICLE

EPIDEMIOLOGICAL TRENDS AND DIAGNOSTIC EVOLUTION OF HPV-RELATED OROPHARYNGEAL CANCER IN A SPANISH TERTIARY CENTER: A 12-YEAR RETROSPECTIVE STUDY

Tendencias epidemiológicas y evolución diagnóstica del cáncer de orofaringe relacionado con el VPH en un hospital terciario español: un estudio retrospectivo de 12 años

Juan Manuel GRANADOS-SITGES ; Jose GRANELL-NAVARRO ; Isabel FERNÁNDEZ-RASTRILLA ; Hernán LÓPEZ-TELLO ; Raimundo GUTIERREZ-FONSECA 

Salud Madrid. Hospital Universitario Rey Juan Carlos. Servicio de Otorrinolaringología. Móstoles. Madrid. Spain
Correspondence: juan.granados.sitges@hotmail.com

Reception date: September 9, 2025

Date of Acceptance: December 6, 2025

Publication date: December 8, 2025

Date of publication of the issue: March 31, 2026

Conflict of interest: The authors declare no conflicts of interest

Images: The authors declare that the images have been obtained with the permission of the patients

Rights policy and self-archive: the self-archive of the post-print version (SHERPA / RoMEO) is allowed

License CC BY-NC-SA. Creative Commons Attribution-NonCommercial-ShareAlike 4.0 International

University of Salamanca. Its commercialization is subject to the permission of the publisher

SUMMARY: Introduction and objective: To describe the prevalence of HPV in patients diagnosed with oropharyngeal squamous cell carcinoma (OPSCC) in our institution over a 12-year period, and to evaluate the evolution of diagnostic strategies before and after the implementation of the 8th edition of the TNM classification. Method: We conducted a retrospective descriptive study of patients diagnosed with OPSCC between March 2012 and March 2024. Clinical and demographic data were retrieved from the institutional head and neck cancer registry. The primary outcome was HPV status, as determined by either p16 immunohistochemistry (IHC) or HPV DNA PCR. Patients were stratified by diagnostic period (pre-2018 vs. post-2018). Results: A total of 107 patients with confirmed squamous cell carcinoma were included. HPV status was available in 81 cases. Overall, 43.2 % of tested patients were HPV-positive, with similar prevalence before (43.3 %) and after (43.1 %) 2018. HPV-positive patients had a mean age of 64.13

years vs. 65.1 in HPV-negative patients ($p = 0.71$). No significant differences were found by sex. Diagnostic strategies shifted from selective PCR testing to systematic p16 IHC after 2018. Discussion: Our study found a markedly higher HPV-positive OPSCC rate (43.2 %) than earlier Spanish reports, likely influenced by systematic p16 testing introduced after 2018. Prevalence remained stable despite methodological changes, with tumor distribution and prognostic patterns consistent with international evidence. These results highlight the need for standardized testing and future research in the Spanish context.

Conclusions: HPV-related OPSCC may be underrecognized in Spain. Despite methodological limitations, this study suggests a higher prevalence than previously reported in national literature. The consistent rates across both periods likely reflect diagnostic evolution rather than a true epidemiological increase. Multicenter studies are needed to assess the clinical impact.

KEYWORDS: human papillomavirus; oropharyngeal cancer; p16; PCR; Spain; epidemiology

RESUMEN: Introducción y objetivo: Describir la prevalencia del VPH en pacientes diagnosticados de carcinoma escamoso de orofaringe (OPSCC) en nuestro centro a lo largo de un período de 12 años, y evaluar la evolución de las estrategias diagnósticas antes y después de la implementación de la 8.ª edición de la clasificación TNM. Método: Se realizó un estudio descriptivo retrospectivo de pacientes diagnosticados de OPSCC entre marzo de 2012 y marzo de 2024. Los datos clínicos y demográficos se obtuvieron del registro institucional de cáncer de cabeza y cuello. La variable principal fue el estatus de VPH, determinado mediante inmunohistoquímica de p16 (IHQ) o PCR de ADN de VPH. Los pacientes se estratificaron por periodo diagnóstico (pre-2018 vs. post-2018). Resultados: Se incluyeron 107 pacientes con carcinoma escamoso confirmado. El estatus de VPH estuvo disponible en 81 casos. En conjunto, el 43,2 % de los pacientes evaluados fueron VPH positivos, con una prevalencia similar antes (43,3 %) y después (43,1 %) de 2018. Los pacientes VPH positivos presentaron una edad media de 64,1 años frente a 65,1 en los VPH negativos ($p = 0,71$). No se encontraron diferencias significativas por sexo. Las estrategias diagnósticas evolucionaron de pruebas selectivas con PCR a la aplicación sistemática de IHQ de p16 a partir de 2018. Discusión: Nuestro estudio descubrió una tasa de OPSCC VPH positivo (43,2 %) notablemente superior a la descrita previamente en España, probablemente influida por la introducción de la determinación sistemática de p16 tras 2018. La prevalencia se mantuvo estable a pesar de los cambios metodológicos, con una distribución tumoral y un perfil pronóstico consistentes con la evidencia internacional. Estos hallazgos subrayan la necesidad de protocolos diagnósticos estandarizados y de más investigación en el contexto español. Conclusiones: El OPSCC relacionado con VPH podría estar infradiagnosticado en España. A pesar de las limitaciones metodológicas, este estudio sugiere una prevalencia superior a la comunicada previamente en la literatura nacional. La estabilidad de las tasas en ambos periodos probablemente refleja la evolución diagnóstica más que un incremento epidemiológico real. Se requieren estudios multicéntricos para evaluar el impacto clínico.

PALABRAS CLAVE: virus del papiloma humano; cáncer orofaringe; p16; PCR; España; epidemiología

INTRODUCTION

Tobacco and alcohol are well-established risk factors for head and neck cancers, accounting for approximately 72 % of cases [1]. In recent decades, high-risk human papillomavirus (HPV), especially genotype 16, has emerged as a distinct

etiological agent, particularly in oropharyngeal squamous cell carcinoma (OPSCC) [2, 3]. As tobacco consumption decreases, the incidence of HPV-associated OPSCC continues to rise in many regions, prompting major changes in diagnostic and staging systems [4].

In 2018, the 8th edition of the AJCC TNM staging system was implemented, distinguishing HPV-positive from HPV-negative tumours due to their different biological behaviour and prognosis [5]. This shift also emphasized the need for accurate HPV detection methods.

The gold standard for identifying transcriptionally active HPV infection is detection of E6/E7 mRNA [6], but this is impractical for routine use. Instead, p16 immunohistochemistry (IHC) has become the standard surrogate marker due to its high sensitivity, cost-effectiveness, and applicability to formalin-fixed samples [7]. PCR remains useful for genotyping but may detect incidental infections. Discordance between PCR and p16 results has clinical implications, particularly when considering treatment de-intensification [8].

While HPV-related OPSCC is well documented in Northern Europe and North America (30–70 % prevalence) [9], its epidemiology in Southern Europe, including Spain, is less clear. Previous Spanish studies have reported prevalences ranging from 1.8 % to 7.4 % [10, 11], but these estimates are outdated or based on limited methodology.

This study aims to assess HPV prevalence in OPSCC over a 12-year period at a Spanish tertiary hospital and to describe how diagnostic practices evolved during the transition from TNM-7 to TNM-8.

MATERIAL AND METHODS

We conducted a retrospective observational study including all patients diagnosed with OPSCC between March 2012 and March 2024. Data were retrieved from the hospital's head and neck tumor registry. Patients with non-squamous histologies were excluded.

For each case, we recorded age, sex, tumor subsite, histological grade, and HPV status. Patients were grouped by period of diagnosis: early (2012–2017) and late (2018–2024), using the official implementation of TNM-8 as the cut-off.

HPV detection methods varied over time. In early years, PCR on pharyngeal swabs was selectively performed in cases with clinical suspicion of HPV positivity (younger, non-smokers). From 2015, p16 IHC was introduced and became routine from 2018. When possible, p16 testing was retrospectively applied to archived tissue. In cases with discordant results (e.g., PCR+/p16–), classification was based on p16 per-CAP guidelines [7].

Descriptive statistics were calculated with Python. Means and standard deviations were used for continuous variables, with t-tests for comparisons. Categorical data were analyzed using proportions and chi-square tests. No multivariable analysis was performed.

RESULTS

A total of 107 patients diagnosed with oropharyngeal squamous cell carcinoma between January 2011, and January 2023 were included in this retrospective study. The majority were male (85.0 %), with a mean age at diagnosis of 63.0 years (SD ± 10.5). The most frequent anatomical subsite affected was the palatine tonsil, followed by the base of tongue and other locations within the oropharynx.

Among all patients, HPV status was determined by p16 immunohistochemistry (IHC) in 94 cases (87.9 %). Of these, 41 patients (43.6 %) were classified as HPV-positive based on diffuse nuclear and cytoplasmic staining in ≥ 70 % of tumor cells. The remaining 53 cases (56.4 %) were considered HPV-negative due to absent or focal p16 expression. In a small subset of 13 cases (12.1 %), HPV status could not be established due to insufficient or unavailable tissue samples.

When comparing the mean age between HPV-positive and HPV-negative patients, a statistically significant difference was observed: HPV-positive patients had a lower mean age (61.4 years; SD ± 9.1) compared to HPV-negative patients (66.1 years; SD ± 10.2), with a p-value of 0.019 using a two-sample t-test (Table 1).

Table 1. Clinical characteristics by period and HPV status

HPV Status	Period	N	Mean Age
HPV+	2011–2017	21	61.4
HPV–	2011–2017	19	64.9
HPV+	2018–2023	20	61.4
HPV–	2018–2023	34	66.1

To explore the temporal distribution of HPV-related diagnoses, the cohort was divided into two periods based on the publication of the 8th edition of the AJCC TNM classification in 2018. Between 2011 and 2017, 40 patients were diagnosed, of whom 21 were HPV-positive (52.5 %). In contrast, from 2018 to 2023, 54 patients were diagnosed, of whom 20 were HPV-positive (37.0 %). Although the observed decrease in HPV prevalence between both periods did not reach statistical significance ($p=0.153$, chi-square test), the trend suggests a possible shift in diagnostic criteria or sampling bias in earlier years.

Importantly, the cases diagnosed before 2018 were more likely to have undergone p16 IHC only when HPV infection was clinically suspected, potentially introducing selection bias. From 2018 onward, p16 testing became routine for all oropharyngeal carcinomas in the institution, in alignment with updated staging guidelines. This change in diagnostic protocol may explain the relatively higher proportion of HPV-positive cases in the earlier period (Table 2).

These results suggest that HPV-associated oropharyngeal carcinoma represents a substantial proportion of cases in this cohort, particularly among younger patients, and highlight the importance of standardized HPV testing protocols to ensure accurate staging and prognosis.

DISCUSSION

Our HPV-positive rate of 43.2 % is significantly higher than the 7.4 % reported by Taberna et al. [11] and far exceeds the 1.8–6.1 % range from earlier Spanish studies [10]. These findings suggest

Table 2. HPV Results by Period and TNM Edition

Period	TNM edition	Total Cases	HPV-positive cases	HPV-positive (%)
2011–2017	7th edition	40	21	52.5
2018–2023	8th edition	54	20	37.0

a potential regional increase or reflect the effects of more systematic HPV testing, especially after 2018.

Although the prevalence remained stable across both periods, the methodology changed substantially. Before 2018, testing was selective and likely introduced a bias toward HPV+ patients. The similar HPV rate after adopting systematic p16 testing supports this hypothesis.

Age and sex differences between HPV+ and HPV– groups were minor. Although a statistically significant age difference was found in the late period, it may not be clinically meaningful. The use of PCR on swabs in early years represents a limitation. This method is not validated for OPC, and although only used in a small subset, those cases were excluded from the final HPV analysis. The predominance of tumors in lymphoid-rich sites (tonsil and base of tongue) and the observed HPV rates are consistent with international patterns [12, 13]. Our findings also align with literature describing better prognosis in HPV+ OPSCC [14]. While we did not assess treatment outcomes or vaccination status, our results provide a foundation for future studies on HPV-related OPC in Spain.

CONCLUSIONS

This study demonstrates a relatively high prevalence of HPV-associated OPSCC in a Spanish tertiary hospital. The consistency of this rate over 12 years suggests a stable burden, with improved detection through standardized p16 IHC. Multi-center prospective studies are needed to confirm these findings and assess their clinical implications in Spain.

ACKNOWLEDGMENTS

The authors would like to thank the staff of the Department of Pathology at Hospital Universitario Rey Juan Carlos whose collaboration was essential for data collection and sample processing.

All procedures performed in studies involving human participants were in accordance with the ethical standards of the Fundación Jiménez Díaz Hospital and with the 1964 Helsinki declaration and its later amendments or comparable ethical standards. The review board CEImFJD granted permission for the study.

REFERENCES

1. Hashibe M, Brennan P, Chuang SC, Boccia S, Castellsague X, Chen C, et al. Interaction between tobacco and alcohol use and the risk of head and neck cancer: pooled analysis in the International Head and Neck Cancer Epidemiology Consortium. *Cancer Epidemiol.* 2009;33(2):541-50. <https://doi.org/10.1016/j.canep.2009.01.004>
2. Kreimer AR, Clifford GM, Boyle P, Franceschi S. Human papillomavirus types in head and neck squamous cell carcinomas worldwide: a systematic review. *Cancer Epidemiol Biomarkers Prev.* 2005;14(2):467-75. <https://doi.org/10.1158/1055-9965.EPI-04-0551>
3. Gillison ML, Broutian T, Pickard RK, Tong ZY, Xiao W, Kahle L, et al. Prevalence of oral HPV infection in the United States, 2009–2010. *JAMA.* 2012;307(7):693-703. <https://doi.org/10.1001/jama.2012.101>
4. Shiboski CH, Schmidt BL, Jordan RC. Tongue and tonsil carcinoma: increasing trends in the U.S. population ages 20–44 years. *Cancer.* 2005;103(9):1843-9. <https://doi.org/10.1002/cncr.20998>
5. Machczyński P, Majchrzak E, Niewinski P, Golusinski W. A review of the 8th edition of the AJCC staging system for oropharyngeal cancer according to HPV status. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2020;277(9):2407-12. <https://doi.org/10.1007/s00405-020-05979-9>
6. Wang F, Flanagan J, Su N, Wang LC, Bui S, Nielson A, et al. RNAscope: a novel in situ RNA analysis platform for formalin-fixed, paraffin-embedded tissues. *J Mol Diagn.* 2012;14(1):22-9. <https://doi.org/10.1016/j.jmoldx.2011.08.002>
7. Lewis JS Jr, Beadle B, Bishop JA, Chernock RD, Colasacco C, Lacchetti C, et al. Human Papillomavirus Testing in Head and Neck Carcinomas: Guideline From the College of American Pathologists. *Arch Pathol Lab Med.* 2018;142(5):559-97. <https://doi.org/10.5858/arpa.2017-0286-CP>
8. Mehanna H, Taberna M, von Buchwald C, Tous S, Bonomo P, Chaturvedi A, et al. Prognostic implications of p16 and HPV discordance in oropharyngeal cancer (HNCIG-EPIC-OPC): a multicentre, multinational, individual patient data analysis. *Lancet Oncol.* 2023;24(3):239-51. [https://doi.org/10.1016/S1470-2045\(23\)00013-X](https://doi.org/10.1016/S1470-2045(23)00013-X)
9. Castellsagué X, Alemany L, Quer M, Halc G, Quirós B, Tous S, et al. HPV involvement in head and neck cancers: comprehensive assessment of biomarkers in 3680 patients. *J Natl Cancer Inst.* 2016;108(6):djv403. <https://doi.org/10.1093/jnci/djv403>
10. Rodrigo JP, Hermesen MAJ, Fresno MF, Brakenhoff RH, García-Velasco F, Snijders PJ, et al. HPV-related oropharyngeal carcinoma: Epidemiological evidence in a Spanish cohort. *Cancer Epidemiol.* 2014;38(3):222-8. <https://doi.org/10.1016/j.canep.2014.02.004>
11. Taberna M, Mena M, Pavón MA, Alemany L, Gillison ML, Mesía R. Human papillomavirus-related oropharyngeal cancer: Molecular diagnosis and management. *Clin Transl Oncol.* 2018;20(4):443-52. <https://doi.org/10.1007/s12094-017-1748-1>
12. Gillison ML, D'Souza G, Westra W, Sugar E, Xiao W, Begum S, et al. Distinct risk factor profiles for human papillomavirus type 16-positive and type 16-negative head and neck cancers. *J Natl Cancer Inst.* 2008;100(6):407-20. <https://doi.org/10.1093/jnci/djn025>
13. Fakhry C, Westra WH, Li S, Cmelak A, Ridge JA, Pinto H, et al. Improved survival of

- patients with human papillomavirus-positive head and neck squamous cell carcinoma in a prospective clinical trial. *J Natl Cancer Inst.* 2008;100(4):261-9. <https://doi.org/10.1093/jnci/djn011>
14. Ragin CC, Taioli E. Survival of squamous cell carcinoma of the head and neck in relation to human papillomavirus infection: review and meta-analysis. *Int J Cancer.* 2007;121(8):1813-20. <https://doi.org/10.1002/ijc.22851>

ARTÍCULO DE REVISIÓN

MANEJO DEL HEMANGIOMA TIMPÁNICO. REVISIÓN SISTEMÁTICA

Timpanic hemangioma management. Systematic review

Jorge BEDIA-GARCÍA ; Cristina CORDERO-CIVANTOS ; Judit PÉREZ-SAEZ ; Luis Arturo RIVAS-SALAS ; Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA 

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

Correspondencia: jbedia@saludcastillayleon.es

Fecha de recepción: 18 de agosto de 2025

Fecha de aceptación: 12 de diciembre de 2025

Fecha de publicación: 14 de diciembre de 2025

Fecha de publicación del fascículo: 31 de marzo de 2026

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-SA. Licencia Creative Commons Atribución/Reconocimiento-NoComercial-CompartirIgual 4.0 Internacional

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

RESUMEN: Introducción y objetivo: El hemangioma timpánico es un tumor poco frecuente de diagnóstico complejo y tratamiento no estandarizado. El objetivo de esta revisión sistemática de la literatura es el de recabar la mayor información posible disponible en la literatura, para analizar el manejo diagnóstico (centrado en las pruebas de imagen solicitadas) y terapéutico (centrado en el abordaje quirúrgico llevado a cabo) de estos tumores.

Método: Mediante una búsqueda bibliográfica avanzada, se recogieron casos de hemangioma timpánico publicados entre 1972 y 2025. Se incluyeron artículos formato caso clínico o series de casos, con diagnóstico confirmado de hemangioma y especificación de la afectación de la membrana timpánica. Se excluyeron aquellos artículos en cuyos casos, el tumor de oído no afectase a la membrana timpánica.

Resultados: Se incluyeron 21 artículos, con un total de 22 casos de hemangioma timpánico. En 7 de ellos no se solicitó ninguna prueba de imagen. En 15 se solicitó como prueba de imagen de estudio la Tomografía Axial Computerizada (TAC), y en 4 de ellos, además, se solicitó una Resonancia Magnética (RM) complementaria (nunca se solicitó una RM como prueba única). En cuanto al tratamiento, en 1 caso se optó por la Radioterapia, y en otro caso el paciente se negó a someterse a una intervención quirúrgica. En los otros 20 casos se intervino al paciente de forma quirúrgica.

Discusión: En cuanto a las pruebas radiológicas, la TAC ha demostrado ser una prueba radiológica adecuada para la mayoría de los casos: describe con precisión el tamaño y extensión del hemangioma, y evalúa la presencia de destrucción ósea. Sin embargo, en lesiones que afectan a oído medio, los datos muestran la conveniencia de solicitar a su vez una RM, ya que esta puede aportar más detalles sobre la consistencia de la lesión, su contenido, y la relación con el nervio facial. En lo referente al tratamiento, parece que hay concordancia en adoptar una actitud activa, con extirpación de la masa y envío para análisis histológico en diferido en la mayoría de los casos. En cuanto al abordaje quirúrgico, queda a decisión del cirujano, en función de la localización, extensión e invasión del tumor.

Conclusiones: Queda patente la necesidad de un protocolo concordado de actuación en cuanto a la petición de pruebas de imagen y actitud en el tratamiento de los hemangiomas timpánicos, pero gracias a la bibliografía disponible, la TAC es la prueba más solicitada por ofrecer información práctica y detallada de las características del tumor, algo útil de cara a la intervención quirúrgica, que es la actitud terapéutica más extendida en los casos en los que el paciente está de acuerdo con ella.

PALABRAS CLAVE: hemangioma; membrana timpánica; abordaje quirúrgico; prueba de imagen

SUMMARY: Introduction and Objective: Tympanic hemangioma is a rare tumor with a complex diagnosis and non-standardized treatment. The aim of this systematic review of the literature is to gather as much available information as possible in order to analyze the diagnostic approach (focusing on imaging studies performed) and therapeutic management (focusing on the surgical approaches undertaken) of these tumors.

Method: performing an advanced bibliographic search, cases of tympanic hemangioma published between 1972 and 2025 were collected. Articles in the form of case reports or case series with a confirmed diagnosis of hemangioma and specification of tympanic membrane involvement were included. Articles describing ear tumors without tympanic membrane involvement were excluded.

Results: Twenty-one articles were included, reporting a total of 22 cases of tympanic hemangioma. In 7 cases, no imaging tests were performed. In 15 cases, Computed Tomography (CT) was requested as the imaging modality, and in 4 of these, an additional Magnetic Resonance Imaging (MRI) study was performed (MRI was never requested as the sole imaging test). Regarding treatment, in 1 case Radiotherapy was chosen, and in another, the patient refused surgical intervention. In the remaining 20 cases, patients underwent surgical treatment.

Discussion: respecting imaging, CT has demonstrated being an appropriate radiological test for most cases: it accurately describes the size and extent of the hemangioma and assesses the presence of bone destruction. However, in lesions involving the middle ear, data reveals the convenience of also requesting an MRI, as it may provide further details regarding the consistency of the lesion, its content, and its relationship with the facial nerve. In terms of treatment, there seems to be consensus on adopting an active approach, with mass excision and subsequent histological analysis in most cases. The choice of surgical approach is left to the surgeon's discretion, depending on the tumor's location, extent, and degree of invasion.

Conclusions: There is a clear need for a standardized management protocol regarding the request for imaging studies and treatment strategies for tympanic hemangioma. However, based on the available literature, CT is the most frequently requested test, as it provides practical and detailed information on the tumor's characteristics—information that is useful for surgical planning, which remains the most common therapeutic approach in cases where the patient agrees to it.

KEYWORDS: hemangioma; tympanic membrane; surgical approach; imaging study

INTRODUCCIÓN

Se sabe que el hemangioma timpánico es un tumor benigno, de estirpe vascular y que, pese a presentarse con frecuencia en el área de cabeza y cuello, es raro que afecte al oído y sus estructuras. En caso de hacerlo, puede afectar al conducto auditivo externo, al oído medio, hueso temporal, y/o conducto auditivo interno [1]. Su presentación es muy variable, y el diagnóstico complejo. Además de una anamnesis y exploración detalladas, se hacen necesarias una serie de pruebas complementarias que apoyen el diagnóstico, y ayuden a planificar la cirugía en caso de que esta fuese necesaria [1, 2]. Suelen realizarse pruebas audiológicas funcionales (como la audiometría tonal o la impedanciometría), y pruebas radiológicas. La solicitud de estas últimas queda al criterio del médico responsable, sin existir unos criterios objetivos claros [3].

En relación con el tratamiento, prácticamente en la totalidad de los casos se practica cirugía de resección del tumor, que busca solucionar la clínica del paciente, así como llegar a un diagnóstico definitivo, que se suele alcanzar únicamente a través del examen histológico [3, 4].

El subgrupo de hemangiomas de oído medio (y en concreto los que afectan a la membrana timpánica), representan un reto diagnóstico y terapéutico importante. Su manejo, tanto diagnóstico como terapéutico es variable en función del paciente (sobre todo de su edad y sintomatología), del tumor (tamaño, extensión, afectación de estructuras nobles), y de cada especialista responsable, lo que no asegura la uniformidad y seguridad de este. El objetivo de esta revisión es el de analizar el manejo de los hemangiomas timpánicos. Se pretende recoger toda la información disponible en la literatura relativa a: solicitud de pruebas de imagen y cuáles específicamente, así como el tratamiento quirúrgico concreto en cada caso [1-5] buscando un posible patrón o criterio de solicitud de pruebas o de elección del abordaje quirúrgico.

MATERIAL Y MÉTODO

Se llevó a cabo una revisión sistemática de la literatura de carácter cualitativo y narrativo. Los criterios de inclusión en esta revisión fueron los siguientes: (1.º) artículos formato caso clínico o series de casos, con casos originales, no repetidos o tomados de otros autores; (2.º) diagnóstico confirmado de hemangioma; (3.º): especificación de la afectación de la membrana timpánica por el hemangioma. Se incluyeron artículos sin restricción en cuanto a fecha de publicación, ni idioma. Se excluyeron aquellos artículos en cuyos casos, el tumor de oído no afectase a la membrana timpánica (tumores selectivos de oído externo, oído interno o de oído medio sin afectación de la membrana timpánica).

Partiendo de un artículo de Marzouqi et al. [1], se realizó una búsqueda en las plataformas de base de datos PubMed, Cochrane y Scopus para llevar a cabo una actualización de la bibliografía en los respectivo a hemangiomas timpánicos.

Las búsquedas incluyeron los términos: ("tympanic hemangioma"[Title/ Abstract]) OR ("tympanic membrane hemangioma"[Title/ Abstract]) AND ("case report"[Title/Abstract] OR "case series"[Title/Abstract] OR "literature review" [Title/Abstract]). La última búsqueda se llevó a cabo en junio del año 2025.

Tres autores analizaron los artículos disponibles, decidiendo su cumplimiento o no de criterios de inclusión en la revisión. La selección se llevó a cabo de forma independiente, y las discrepancias se resolvieron por consenso. No se utilizaron herramientas de automatización durante el proceso de selección de artículos.

La extracción de datos fue llevada a cabo por dos autores, que trabajaron de forma independiente y cada uno de ellos extrajo los datos de todos los artículos incluidos en la revisión. Las discrepancias en cuanto a la extracción de dichos datos se resolvieron por consenso.

Se extrajeron datos sobre la epidemiología de los pacientes, las pruebas radiológicas solicitadas

en cada caso (con justificación en caso de aportarla los autores) y el abordaje y técnica quirúrgicas (con justificación en caso de aportarla los autores).

El riesgo de sesgo en cuanto a los artículos incluidos no se evaluó, al no ser el objetivo de la revisión medir los resultados clínicos en función de las pruebas solicitadas o intervención quirúrgica llevada a cabo. Esta revisión pretende analizar la metodología adoptada en el manejo de cada caso de hemangioma timpánico, sin medir el efecto de ella en los resultados.

En cuanto al desarrollo estructural de la revisión, se utilizó la herramienta EQUATOR, completando su checklist para revisiones sistemáticas, que sigue las directrices del grupo PRISMA (Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses).

RESULTADOS

Marzouqi et al. [1] recogen 31 casos de hemangiomas de oído (30 artículos, 29 formato caso clínico único (incluyendo el suyo propio), y 1 en formato serie de casos incluyendo dos casos). La búsqueda de actualización encontró otros 8 artículos más (todos ellos formato caso clínico). Así, se obtuvo un total de 39 casos clínicos de hemangioma de oído, incluidos en 38 artículos en total. De este total, todos cumplían los dos primeros criterios de inclusión. Se excluyeron 17 casos clínicos por no cumplir el tercer criterio de inclusión, al no afectar el hemangioma a la membrana timpánica, o no especificarse dicha afectación (por afectación selectiva del oído externo en la mayoría de ellos). Los casos clínicos publicados por Reeck et al., Rutherford et al. y Covelli et al. son algunos de esos ejemplos [24-26].

Esta selección de artículos, partiendo de los resultados de la búsqueda inicial, queda detallada en un diagrama de flujo PRISMA 2020 [6] (Figura 1).

Quedaron de esta manera seleccionados 21 artículos, y un total de 22 casos de hemangioma timpánico. Se elaboró una tabla, incluyendo datos

de los autores, año de publicación del caso clínico, motivo de consulta, así como los datos objetivo de la revisión (especificados en el apartado material y método) (Tabla 1, Anexo 1).

Del total de los 22 casos, en 7 de ellos no se solicitó ninguna prueba de imagen. En 15 se solicitó como prueba de imagen de estudio la Tomografía Axial Computerizada (TAC), y en 4 de ellos, además, se solicitó una Resonancia Magnética (RM) complementaria (nunca se solicitó una RM como prueba única).

En cuanto al tratamiento, en 1 caso se optó por la Radioterapia, y en otro caso el paciente se negó a someterse a una intervención quirúrgica. En los otros 20 casos se llevó a cabo una cirugía para extirpación del hemangioma. En 14 de ellos se optó por un abordaje transcanal con microscopio. En 5 de ellos, el abordaje para la resección del tumor fue retroauricular, acompañándose de una mastoidectomía en 3 de ellos. Y hubo en 1 caso en el que el abordaje fue transcanal con endoscopio.

DISCUSIÓN

PRUEBAS RADIOLÓGICAS

En la Tabla 1 (Anexo 1), puede observarse como hasta 1999, la mayoría de los cirujanos no solicitaban ninguna prueba de imagen para el estudio de la masa. Sólo Balkany et al [7] solicita una TAC peñascos. Aunque en dicho artículo no especifican la razón de la solicitud, su actitud expectante inicial en cuanto al tratamiento del hemangioma, e interés en conocer para ello su extensión e invasión podría justificarla.

A partir de 2001, todos los autores reflejan la solicitud de una o varias pruebas de imagen para el estudio de los hemangiomas. Todos ellos solicitan una TAC de peñascos. 4 de ellos, además, asocian RM complementaria: Bijelic et al [14] justifican la solicitud de la TAC para conocer la extensión de la masa y planificar la cirugía, y dejan reflejado como ellos no solicitaron la RM. Se trataba de un estudio radiológico realizado varios años antes del estudio

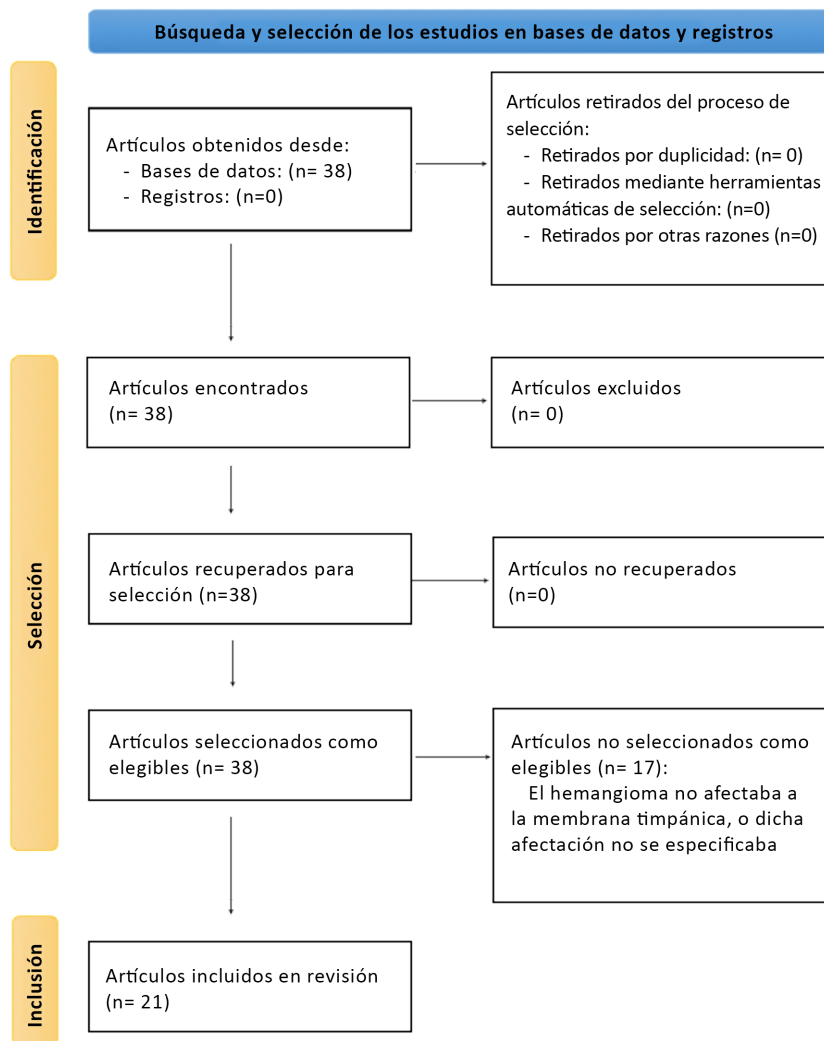


Figura 1. Diagrama de flujo PRISMA 2020 para nuevas revisiones sistemáticas donde se detalla la selección de artículos desde su búsqueda hasta su inclusión en la revisión

del hemangioma, que no presentaba hallazgos en oído, pero sí un depósito de hemosiderina en un pedúnculo cerebral, que ellos acuñan como signo probable de sangrado de otro angioma; Por su parte, Magliulo et al. [17] solicitan ambas pruebas con la

intención expresa de evaluar la calidad de ambas para el estudio del hemangioma. Concluyen que la TAC delimita mejor la tumoración y su extensión en comparación con la RM; Spector et al [20] no justifican la petición de sus pruebas de imagen;

Mientras, Odat et al [21] especifican que la solitud de la RM se basa en su interés por conocer la afectación de oído medio y probable cercanía o invasión del nervio facial (el hemangioma expuesto en su caso, invade el ático y alcanza la altura de la segunda porción del facial, sin evidencias en la TAC de erosión ósea).

De esta forma, parece que la TAC es una prueba radiológica adecuada para la mayoría de los casos: describe con precisión el tamaño y extensión del hemangioma, y evalúa la presencia o no de destrucción ósea [3, 17]. Sin embargo, en lesiones que afectan a oído medio, parece conveniente solicitar a su vez una RM, ya que esta puede aportar más detalles sobre la consistencia de la lesión, su contenido, y la relación con el nervio facial [21]. Aunque ninguno de los autores las solicita, la petición de pruebas angiológicas podría ser útil en lesiones de gran extensión, en las que se prevea un sangrado abundante [17].

ABORDAJES QUIRÚRGICOS

Parece que hay concordancia en la actitud terapéutica frente a los hemangiomas timpánicos. De los 22 casos, la gran mayoría deciden adoptar una actitud activa, con extirpación de la masa y envío para análisis histológico en diferido. [2-3, 8, 11] El diagnóstico definitivo de hemangioma timpánico se obtiene mediante análisis microscópico. A través de la exploración y pruebas de imagen sólo es posible sospecharlo, y el diagnóstico diferencial es amplio [1, 4-5]. Crowson et al. [22] resaltan, que, dada la infrecuencia de los hemangiomas timpánicos, tanto desde el punto de vista de confirmar el diagnóstico, como de descartar otros más probables, la resección quirúrgica parece la opción más aconsejable. Hay otros casos en los que la actitud terapéutica no se justifica, a pesar de que el paciente que consulta, acude asintomático. [6-7, 11-12].

El abordaje más común es el transcanal con microscopio, sin justificar la mayoría de autores el porqué de elegir ese abordaje sobre los demás [6, 8, 10-11]. Muchos practican resección sin

reconstrucción, y hay otros que reconstruyen la membrana timpánica en caso de daño de esta, cosa que sí suelen detallar [3, 14]. Los abordajes retroauriculares son los menos [9, 18-19, 21-22], y solamente Odat et al. [21] justifican la elección del abordaje, y la práctica de una mastoidectomía (debido a la afectación extensa de oído medio y la cercanía del tumor al nervio facial).

Conviene recordar que la actitud expectante siempre es una opción [15]. Balkany et al. [7] toman en un primer momento. La justifican en la asintomatología del paciente y el tamaño y escasa extensión del tumor. A los 18 meses, el tumor duplicó su tamaño, por lo que decidieron extirparlo mediante un abordaje transcanal con microscopio.

Como singularidad, un paciente fue tratado con radioterapia, con buenos resultados a los 5 años [16]. Hay, hoy en día, grupos que siguen trabajando en alternativas de tratamiento, entre las que se encuentra la radioterapia, pero estas aún se encuentran en fase experimental [1].

Huang et al [5] utilizaron un endoscopio de oído para resecar el hemangioma. En comparación con la visión microscópica, se sabe que la visión endoscópica proporciona una mayor calidad de imagen, una visión espacial de mayor amplitud y es menos invasiva. Es por ello que comienza a ganar popularidad entre los cirujanos para cirugías de esta índole.

Por supuesto, debemos destacar la importancia de la sintonía entre la actitud planteada por el cirujano, y la deseada por el paciente. Sin el deseo de este de ser intervenido, nada de los anteriormente mencionado puede llevarse a cabo [13].

LIMITACIONES

La revisión de Marzouqi et al. [1] que se toma como referencia, es una revisión comprensiva de la literatura, no una revisión sistemática. Esto podría haber dejado ciertos artículos previos a 2020 sin incluir. Por el contrario, el basarnos en esta revisión permite encontrar artículos que incluyen

casos de hemangioma timpánico, pero que están codificados como tumores del conducto auditivo externo, por lo que en ese sentido que la revisión sea comprensiva y algo más laxa, es beneficioso. Por otra parte, hay muchos autores que no especifican la solicitud o no de pruebas de imagen [11-13], e igualmente bastantes de los que sí lo especifican, no justifican el porqué de esa solicitud [16, 19-20]. Además, hay también muchos autores que no detallan la cirugía que realizan en su correspondiente caso, ni justifican el abordaje utilizado. Esto, es en parte debido a que todos los artículos que se incluyen cuya fecha de publicación es anterior a 1983 [6-9] no pueden visualizarse en formato de texto completo. Otra limitación reside en la no aplicación de herramientas de evaluación de sesgo cuantitativo. Como justificación, el objetivo de la revisión era exploratorio o de mapeo, más que de evaluación de la calidad comparativa de los estudios. A su vez, muchos estudios no ofrecían datos suficientes sobre su metodología o variables, y en los casos en los que sí se incluían, dichos datos no eran numéricos o cuantitativos, si no cualitativos. Todo ello, dificulta alcanzar el objetivo propuesto de recabar la mayor información posible a cerca del manejo de los hemangiomas timpánicos.

CONCLUSIONES

En cuanto al manejo de los hemangiomas timpánicos, no existe un protocolo claro de actuación en cuanto a la petición de pruebas de imagen o actitud en el tratamiento, pero gracias a la bibliografía disponible, existen ejemplos en los que fijarnos, y que pueden orientar nuestra práctica clínica, adecuándola lo máximo posible a las necesidades del paciente y las características del tumor.

BIBLIOGRAFÍA

1. Marzouqi S, Roa H. Hemangioma of the External Auditory Canal and Temporal Bone: A Case Report and Comprehensive Literature Review. *Ear Nose Throat J.* 2024 Dec;103(12):NP720-NP726. <https://doi.org/10.1177/01455613211029795>. Epub 2022 Mar 31. PMID: 35354340.
2. Cruz Toro P, Mesa Marrero M, Hernández Montero E, Pané Foix M. Cavernous hemangioma of the tympanic membrane. Case report and review of literature. *Acta Otorrinolaringol Esp (Engl Ed).* 2020 Nov-Dec;71(6):393-395. English, Spanish. <https://doi.org/10.1016/j.otorri.2019.09.002>. Epub 2020 Feb 19. PMID: 32087925.
3. Lygeros S, Athanasopoulos M, Daniilidi A, Danielides G, Grigoriadis KD, Danielides V. Mixed hemangioma of the external auditory canal and the tympanic membrane in a young woman: A case report. *Clin Case Rep.* 2022 Feb 18;10(2):e05452. <https://doi.org/10.1002/ccr3.5452>. PMID: 35223015; PMCID: PMC8855490
4. Huang Q, Qin H, Li L, Gong L, Lv Y. Cavernous Hemangioma of the External Auditory Canal Involving the Tympanic Membrane: Case Report and Literature Review. *Ear Nose Throat J.* 2025 Jan 1;1455613241312072. <https://doi.org/10.1177/01455613241312072>. Epub ahead of print. PMID: 39743548.
5. Page MJ, McKenzie JE, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, Shamseer L, Tetzlaff JM, Akl EA, Brennan SE, Chou R, Glanville J, Grimshaw JM, Hróbjartsson A, Lalu MM, Li T, Loder EW, Mayo-Wilson E, McDonald S, McGuinness LA, Stewart LA, Thomas J, Tricco AC, Welch VA, Whiting P, Moher D. The PRISMA 2020 statement: an updated guideline for reporting systematic reviews. *BMJ.* 2021 Mar 29;372:n71. <https://doi.org/10.1136/bmj.n71>. PMID: 33782057; PMCID: PMC8005924.
6. Freedman SI, Barton S, Goodhill V. Cavernous angiomas of the tympanic membrane. *Arch Otolaryngol (Chicago, Ill.: 1960).* 1972;96(2):158-160. <https://doi.org/10.1001/archotol.1972.00770090232013>
7. Balkany TJ, Meyers AD, Wong ML. Capillary hemangioma of the tympanic membrane. *Arch Otolaryngol.* 1978;104(5): 296-297. <https://doi.org/10.1001/archotol.1978.00790050062015>
8. Andrade JM, Gehris CW Jr, Breitenacker R. Cavernous hemangioma of the tympanic membrane. A case report. *Am J Otol.* 1983; 4(3):198-199

9. Kemink JL, Graham MD, McClatchey KD. Hemangioma of the external auditory canal. *Am J Otol.* 1983;5(2):125-126.
10. Jackson CG, Levine SC, McKennan KX. Recurrent hemangioma of the external auditory canal. *Am J Otol.* 1990;11(2):117-118.
11. Albritton F, Lenis A. Cavernous hemangioma of the tympanic membrane. *Ear Nose Throat J.* 1994;73(11):808.
12. Pulec JL, Deguine C. Attic angioma. *Ear Nose Throat J.* 1998; 77(5):362.
13. Ramírez Anguiano J, Vilar Puig P. Hemangioma cavernoso de la membrana timpánica. *Imagen Otoscópica Rev Invest Clín.* 1999; 51(1):39-42.
14. Bijelic L, Wei JL, McDonald TJ. Hemangioma of the tympanic membrane. *Otolaryngol-Head Neck Surg.* 2001;125(3):272-273. <https://doi.org/10.1067/mhn.2001.116018>
15. Hiraumi H, Miura M, Hirose T. Capillary hemangioma of the tympanic membrane. *Am J Otolaryngol.* 2005;26(5):351-352. <https://doi.org/10.1016/j.amjoto.2005.02.006>
16. Pavamani SP, Surendrababu NR, Ram TS, Thomas M, Viswanathan PN, Viswanathan FR. Capillary haemangioma involving the middle and external ear: radiotherapy as a treatment method. *Australas Radiol.* 2007;51(4):394-397. <https://doi.org/10.1111/j.1440-1673.2007.01733.x>.
17. Magliulo G, Parrotto D, Sardella B, Della Rocca C, Re M. Cavernous hemangioma of the tympanic membrane and external ear canal. *Am J Otolaryngol.* 2007;28(3):180-183. <https://doi.org/10.1016/j.amjoto.2006.03.012>.
18. Bovo R, Ciorba A, Castiglione A, Martini A. Cavernous hemangioma of the external ear: case report and literature review. *B- ENT.* 2010;6(2):127-130.
19. Jang CH, Choi HS, Hong YS, Cho YB. Cavernous hemangioma of the tympanic membrane. *Clin Exp Otorhinolaryngol.* 2011; 4(2):109-111. <https://doi.org/10.3342/ceo.2011.4.2.109>
20. Spector ME, Adams ME, Arts HA. Capillary hemangioma of the tympanic membrane. *Am J Otolaryngol.* 2011;32(6):615-616. <https://doi.org/10.1016/j.amjoto.2010.09.005>
21. Odat H, Al-Qudah M, Al-Qudah MA. Cavernous hemangioma of the external canal, tympanic membrane, and middle ear cleft: a case report. *Head Neck Pathol.* 2016;10(2):261-264. <https://doi.org/10.1007/s12105-015-0650-0>
22. Crowson MG, Cunningham CD III. Capillary hemangioma of the tympanic membrane. *Otolaryngol-Head Neck Surgery.* 2017; 156(5):964-965. <https://doi.org/10.1177/0194599817699403>
23. Kim SB, Lee HH. Capillary hemangioma of the tympanic membrane and external auditory canal. *J Craniofac Surg.* 2017;28(3): e231-e232. <https://doi.org/10.1097/SCS.0000000000003437>
24. Reeck JB, Yen TL, Szmit A, Cheung SW. Cavernous hemangioma of the external ear canal. *Laryngoscope.* 2002;112(10): 1750-1752. <https://doi.org/10.1097/00005537-200210000-00007>
25. Rutherford KD, Leonard G. Hemangiomas of the external auditory canal. *Am J Otolaryngol.* 2010;31(5):384-386. <https://doi.org/10.1016/j.amjoto.2009.04.004>
26. Covelli E, De Seta E, Zardo F, De Seta D, Filipo R. Cavernous haemangioma of external ear canal. *J Laryngol Otol.* 2008; 122(8):e19. <https://doi.org/10.1017/S0022215108002909>

MANEJO DEL HEMANGIOMA TIMPÁNICO. REVISIÓN SISTEMÁTICA

BEDIA-GARCÍA J, CORDERO-CIVANTOS C, PÉREZ-SÁEZ J ET AL

ANEXO I

Tabla 1. Resultados de los datos recogidos para los 22 casos de hemangioma timpánico entre 1972 y 2025

Autor/Año	Motivo Consulta	Prueba/s Radiológica/s	Justificación pruebas radiológicas	Abordaje Quirúrgico	Justificación abordaje quirúrgico
Freedman 1972 [6]	Asintomático	No solicitan	-	Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Freedman 1972 [6]	Otalgia	No solicitan	-	Transcanal microscópico (resección + reconstrucción)	-
Balkany 1978 [7]	Asintomático	TAC peñasco	-	1º vigilancia; 2º Transcanal microscópico (sólo resección)	Decidieron actitud expectante inicial, pero el tumor se duplicó en 18 meses, y decidieron intervenir
Andrade 1983 [8]	Sin especificar	No especifican	-	Transcanal microscópico (resección + reconstrucción)	-
Kemink 1983 [9]	Sin especificar	No especifican	-	Retroauricular + mastoidectomía (resección + reconstrucción)	-
Jackson 1990 [10]	Otitis externa	TAC peñasco	-	Transcanal microscópico (resección + reconstrucción)	-
Albritton 1994 [11]	Asintomático	No especifican	-	Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Pulec and Deguine 1998 [12]	Asintomático	No especifican	-	Transcanal microscópico (resección + reconstrucción)	-
Ramírez 1999 [13]	Acúfeno	No especifican	-	El paciente rechazó la cirugía	-
Bijelic 2001 [14]	Prurito y Otalgia	TAC peñasco + RMN	TAC pedido para filiar y planificar cirugía de la masa; RMN solicitada varios años antes del estudio del hemangioma por una razón desconocida,	Transcanal microscópico (resección + reconstrucción)	-
Hiraumi 2005 [15]	Otalgia, Otorrea e Hipoacusia	TAC peñasco	-	Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Pavamani 2007 [16]	Otorragia	TAC peñasco	-	Radioterapia	-

(continuada)

MANEJO DEL HEMANGIOMA TIMPÁNICO. REVISIÓN SISTEMÁTICA
BEDIA-GARCÍA J, CORDERO-CIVANTOS C, PÉREZ-SÁEZ J ET AL

Tabla 1. Resultados de los datos recogidos para los 22 casos de hemangioma timpánico entre 1972 y 2025 (*continuada*)

Autor/Año	Motivo Consulta	Prueba/s Radiológica/s	Justificación pruebas radiológicas	Abordaje Quirúrgico	Justificación abordaje quirúrgico
Magliulo 2007 [17]	Acúfeno	TAC peñasco + RMN	Para evaluar la calidad entre ambas pruebas, y concluyen que la RMN no delimita bien la extensión del tumor.	Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Bovo 2010 [18]	Acúfeno e Hipoacusia	TAC peñasco	-	Retroauricular + mastoidectomía (resección + reconstrucción)	-
Jang 2011 [19]	Acúfeno	TAC peñasco	-	Retroauricular (resección + reconstrucción)	-
Spector 2011 [20]	Acúfeno e Hipoacusia	TAC peñasco + RMN	-	Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Odat 2016 [21]	Acúfeno e Hipoacusia	TAC peñasco + RMN	Justifica la petición de la RMN por mejor capacidad de estudio de la extensión hacia oído medio y de la invasión del nervio facial.	Retroauricular + mastoidectomía (resección + reconstrucción)	Afectación oído medio, con inclusión de cadena osicular y cercanía al nervio facial.
Crowson 2017 [22]	Acúfeno	TAC peñasco		Retroauricular (resección + reconstrucción)	-
Kim 2017 [23]	Hipoacusia y Taponamiento Ótico	TAC peñasco		Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Cruz Toro 2020 [2]	Taponamiento Ótico	TAC peñasco	No solicitan RMN por ausencia de extensión a oído medio.	Transcanal microscópico (sólo resección)	-
Lygeros 2022 [3]	Otorrea e Hipoacusia	TAC peñasco	No solicitan RMN por ausencia de extensión a oído medio.	Transcanal microscópico (resección + reconstrucción)	-
Huang 2025 [4]	Taponamiento Ótico	TAC peñasco	No solicitan RMN por ausencia de extensión a oído medio.	Transcanal endoscópico (resección + reconstrucción)	-

ARTÍCULO DE REVISIÓN

RABDOMIOSARCOMA NASAL: ESTRATEGIAS TERAPÉUTICAS Y FACTORES PRONÓSTICOS. UNA REVISIÓN SISTEMÁTICA

Nasal rhabdomyosarcoma: therapeutic strategies and prognostic factors. A systematic review

José Carlos REDONDO-BENAVENTE^{ID}; Jesús Carlos VERGE-GONZÁLEZ^{ID}; Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ^{ID}; Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS^{ID}

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

Correspondencia: Jcredondobena@gmail.com

Fecha de recepción: 10 de diciembre de 2025

Fecha de aceptación: 9 de enero de 2026

Fecha de publicación: 11 de enero de 2026

Fecha de publicación del fascículo: 31 de marzo de 2026

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-SA 4.0. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-CompartirIgual 4.0 Internacional

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

RESUMEN: Introducción: El rabdomiosarcoma nasal (RMS) es una neoplasia maligna poco frecuente en adultos, representando menos del 1% de los sarcomas en esta población. Este tumor, derivado de células precursoras del músculo estriado, plantea importantes desafíos diagnósticos y terapéuticos debido a la compleja anatomía de la cavidad nasal y su proximidad a estructuras vitales. Objetivos: Analizar el manejo del rabdomiosarcoma nasal en adultos, enfocándose en los subtipos histológicos más frecuentes, características clínicas, modalidades terapéuticas, factores pronósticos clave y áreas de investigación futura para mejorar el tratamiento. Material y métodos: Se realizó una revisión sistemática en PubMed, MEDLINE, Cochrane Library y Scopus, incluyendo todos los estudios publicados en inglés o español entre 2016 y 2024. Resultados: La distribución de los subtipos histológicos fue heterogénea entre estudios; en análisis poblacionales amplios el subtipo pleomórfico fue el más frecuente en adultos, mientras que en series institucionales se observaron proporciones variables de subtipos alveolar y embrionario. El diagnóstico se realiza típicamente en estadios avanzados debido a la inespecificidad clínica inicial. El tratamiento multimodal, que combina cirugía, quimioterapia y radioterapia, fue el enfoque predominante.

La cirugía endoscópica mostró resultados prometedores en tumores resecables, con tasas de control local mejoradas. Sin embargo, los regímenes de quimioterapia presentaron una eficacia limitada en adultos en comparación con la población pediátrica. La radioterapia con protones emergió como una opción en casos con compromiso anatómico crítico. Por otro lado, la inmunoterapia, particularmente con inhibidores de PD-L1, demostró potencial en casos seleccionados. Los factores pronósticos identificados incluyeron la histología tumoral, la invasión local, los márgenes quirúrgicos y la presencia de alteraciones moleculares como la fusión PAX-FOXO1. Conclusiones: El manejo del RMS nasal en adultos requiere un enfoque personalizado, dada la agresividad del subtipo alveolar y la baja respuesta a las terapias convencionales. La terapia con protones y la inmunoterapia son estrategias prometedoras, pero se necesitan más estudios para evaluar su eficacia a largo plazo. Las futuras investigaciones deben centrarse en una mejor caracterización molecular y en la realización de ensayos clínicos multicéntricos para optimizar los protocolos de tratamiento.

PALABRAS CLAVE: rabdomiosarcoma nasal; RMS sinonasal; rabdomiosarcoma alveolar; protonterapia; inmunoterapia; tratamiento multimodal

SUMMARY: Introduction: Nasal rhabdomyosarcoma (RMS) is a rare malignant neoplasm in adults, accounting for less than 1 % of sarcomas in this population. This tumor, originating from precursor cells of striated muscle, poses significant diagnostic and therapeutic challenges due to the complex anatomy of the nasal cavity and its proximity to vital structures, necessitating a personalized and multidisciplinary treatment approach. Objectives: To analyze the management of nasal rhabdomyosarcoma (RMS) in adults, focusing on the most common histological subtypes, clinical features, therapeutic modalities, key prognostic factors, and future research areas aimed at improving treatment. Materials and methods: A systematic review was conducted in PubMed, MEDLINE, Cochrane Library, and Scopus, including all studies published in English or Spanish between 2016 and 2024. Results: The distribution of histological subtypes was heterogeneous across studies; in large population-based analyses, the pleomorphic subtype was the most frequent in adults, whereas institutional case series reported variable proportions of alveolar and embryonal subtypes. Diagnosis is typically made at advanced stages due to the non-specific initial clinical presentation. A multimodal treatment approach, combining surgery, chemotherapy, and radiotherapy, was the predominant strategy. Endoscopic surgery showed promising results in resectable tumors, with improved local control rates. However, chemotherapy regimens demonstrated limited efficacy in adults compared to the pediatric population. Proton beam radiotherapy emerged as an option for cases with critical anatomical involvement. Additionally, immunotherapy, particularly with PD-L1 inhibitors, showed potential in selected cases. Prognostic factors identified included tumor histology, local invasion, surgical margins, and the presence of molecular alterations such as the PAX-FOXO1 fusion. Conclusions: The management of nasal RMS in adults requires a personalized approach due to the aggressiveness of the alveolar subtype and the poor response to conventional therapies. Proton therapy and immunotherapy are promising strategies, but further studies are needed to assess their long-term efficacy. Future research should focus on improved molecular characterization and the implementation of multicenter clinical trials to optimize treatment protocols.

KEYWORDS: nasal rhabdomyosarcoma; sinonasal RMS; alveolar rhabdomyosarcoma; proton therapy; immunotherapy; multimodal treatment

INTRODUCCIÓN

El rabdomiosarcoma (RMS) es un tumor maligno de origen mesenquimal derivado de las células precursoras del músculo estriado. Aunque constituye el sarcoma de tejidos blandos más frecuente en la infancia, su presentación en adultos es excepcional, representando menos del 1% de los sarcomas en este grupo etario. La variante nasosinusal es más infrecuente, asociándose a un peor pronóstico, especialmente en adultos [1]. La complejidad de la anatomía regional y la proximidad a estructuras vitales, dificultan el manejo de estos pacientes, por lo que cobran importancia de enfoques terapéuticos multidisciplinarios [1-3].

El caso que motiva esta revisión sistemática corresponde a un varón de 25 años que consultó por dolor hemifacial, anosmia y episodios recurrentes de epistaxis, siendo diagnosticado de rabdomiosarcoma alveolar nasal en estadio avanzado. Este caso ilustra la agresividad de la enfermedad y las dificultades diagnósticas y terapéuticas que plantea el rabdomiosarcoma nasal en adultos jóvenes.

Este caso clínico resalta la complejidad en el manejo del rabdomiosarcoma nasal en adultos jóvenes y la necesidad de estrategias de tratamiento basadas en evidencia. A pesar de que los protocolos terapéuticos en adultos suelen basarse en esquemas pediátricos [2], las tasas de supervivencia en adultos continúan siendo considerablemente más bajas, lo que sugiere diferencias biológicas y de respuesta al tratamiento entre ambos grupos etarios [1, 3]. Esta revisión busca sintetizar la evidencia disponible para guiar mejor el tratamiento de esta rara entidad clínica.

El objetivo de esta revisión es analizar y sintetizar la literatura sobre el manejo del rabdomiosarcoma nasal en adultos, con especial énfasis en los subtipos histológicos más frecuentes, las modalidades terapéuticas, y los factores pronósticos asociados. Esta revisión se realiza a propósito del caso clínico mencionado, con el fin de proporcionar una perspectiva clínica basada en la evidencia y que

ofrezca recomendaciones concretas para el manejo multidisciplinario de esta patología.

Los objetivos de esta revisión son describir las características clínicas del rabdomiosarcoma nasal en adultos, comparándolas con las presentaciones pediátricas; identificar los factores pronósticos clave que influyen en la supervivencia, incluyendo la extensión del tumor, la invasión local y los marcadores moleculares; evaluar la eficacia de las estrategias terapéuticas actuales, incluyendo cirugía, quimioterapia, radioterapia y terapias avanzadas como la inmunoterapia; analizar la evolución de los enfoques quirúrgicos y el papel de la radioterapia de protones en el manejo de la enfermedad; y proponer líneas futuras de investigación que aborden las brechas en el conocimiento actual sobre el tratamiento del rabdomiosarcoma nasal en adultos.

MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una revisión sistemática siguiendo las directrices PRISMA. La búsqueda se llevó a cabo en las bases de datos Cochrane Library, Embase, IEEE Xplore, MEDLINE, PubMed, Scopus y SPRINGERLink, utilizando combinaciones de los términos “adult”, “*rhabdomyosarcoma nasal*”, “*sino-nasal rhabdomyosarcoma*”, “*rhabdomyosarcoma treatment*” y “*nasal cancer*”, junto con “*radiotherapy*” y “*chemotherapy*”, adaptados a cada buscador. Asimismo, se realizó una búsqueda manual adicional en las referencias de los estudios clave para identificar artículos no recuperados inicialmente.

Se incluyeron estudios publicados entre 2016 y 2024 que abordaran casos de rabdomiosarcoma localizado en cavidad nasal y/o senos paranasales en pacientes adultos (≥ 18 años). Se priorizó la inclusión de trabajos que aportaran información sobre diagnóstico, manejo clínico, tratamiento multimodal y factores pronósticos en adultos, con especial énfasis en aquellos que reportaran datos de supervivencia, recurrencia y respuesta al tratamiento.

Se incluyeron estudios con población mixta (adulto-pediátrica) únicamente si proporcionaban datos desagregados para adultos o si los resultados correspondientes a adultos eran identificables de forma explícita y aplicables al contexto clínico adulto. Los datos procedentes de series exclusivamente pediátricas o de población AYA (adolescentes y adultos jóvenes) se utilizaron, en su caso, solo como contexto (por ejemplo, para discutir diferencias biológicas o terapéuticas) y se señalaron explícitamente como tales.

Se excluyeron los estudios centrados exclusivamente en población pediátrica sin datos comparables o extraíbles en adultos, así como publicaciones sin datos clínicos utilizables (editoriales, cartas u opiniones) o con información insuficiente para su extracción. Finalmente, se incluyeron solo artículos en inglés o español.

Los títulos y resúmenes fueron revisados de manera independiente por dos revisores, descartándose aquellos que no cumplían los criterios de inclusión. Los artículos preseleccionados se analizaron a texto completo. Las discrepancias se resolvieron mediante consenso o, cuando fue necesario, con la intervención de un tercer revisor.

La calidad metodológica de los estudios seleccionados se evaluó mediante herramientas validadas. Para los estudios observacionales se utilizó la escala de Newcastle-Ottawa, y para los ensayos clínicos, la escala CONSORT. Dado que la mayoría de los trabajos correspondían a series retrospectivas unicéntricas o análisis de bases de datos, el riesgo de sesgo fue considerado moderado-alto, principalmente por sesgo de selección y confusión. La mayor parte de las cohortes observacionales obtuvo puntuaciones intermedias en la escala de Newcastle-Ottawa, limitadas por tamaños muestrales reducidos, ausencia de grupos comparadores y heterogeneidad en los criterios terapéuticos. No se identificaron ensayos clínicos aleatorizados específicos en población adulta con rhabdomyosarcoma nasal; en consecuencia, la evidencia disponible correspondió predominantemente a niveles de

evidencia III-IV, lo que obliga a interpretar los resultados con cautela.

Los datos extraídos se sintetizaron en tablas que incluyeron información demográfica, subtipos histológicos, modalidades terapéuticas y resultados clínicos. Debido a la heterogeneidad metodológica y clínica de los estudios incluidos, no fue factible realizar un metaanálisis cuantitativo, optándose por una síntesis cualitativa narrativa.

Esta revisión no fue registrada previamente en PROSPERO, dado el carácter excepcional de la entidad y la limitada literatura disponible; no obstante, el protocolo de búsqueda y selección se definió previamente y se siguió de forma estricta.

RESULTADOS

El diagrama de flujo PRISMA (Figura 1) muestra el proceso de selección de estudios, desde la identificación inicial hasta la selección final. Se encontraron 387 registros mediante búsquedas bibliográficas, de los cuales 180 fueron eliminados por ser duplicados, dejando 207 registros únicos. Durante la selección, 120 registros fueron excluidos por no cumplir con los criterios preliminares, quedando 87 registros preseleccionados. Posteriormente, se evaluaron a texto completo 25 artículos, de los cuales 10 fueron excluidos, 7 por no cumplir los estándares PRISMA y 4 por falta de validación. Finalmente, 14 estudios cumplieron todos los criterios de inclusión y fueron considerados en la revisión.

Los resultados proceden de estudios con importante heterogeneidad metodológica y poblacional, que incluyen desde análisis poblacionales de gran tamaño hasta series institucionales pequeñas y casos aislados. En consecuencia, los hallazgos se presentan como una síntesis cualitativa, destacando tanto los patrones comunes como las divergencias observadas entre estudios, más que como estimaciones cuantitativas uniformes.

La revisión incluyó un total de 14 estudios que cumplían con los criterios de inclusión (Tabla 1,

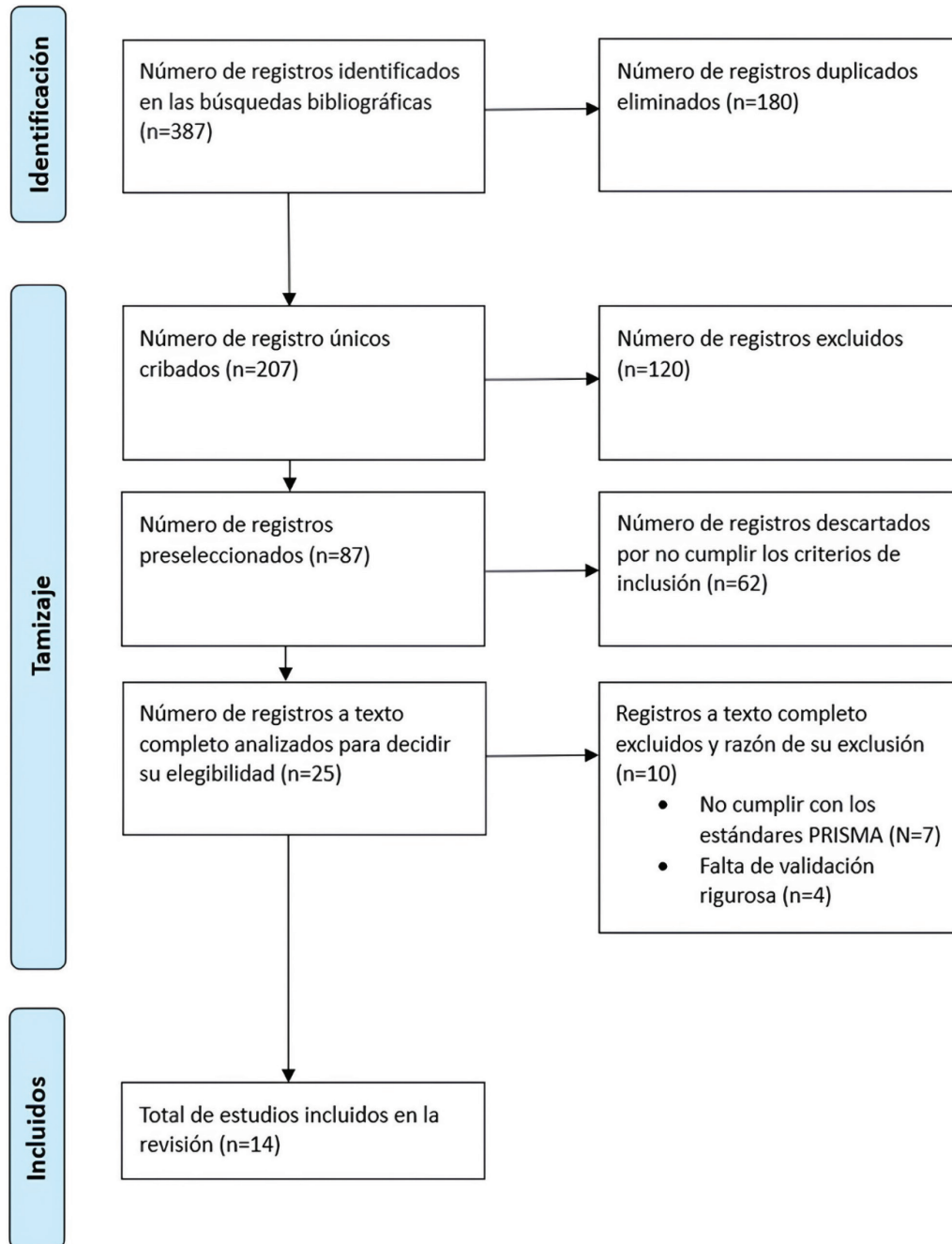


Figura 1. Diagrama de flujo PRISMA

Anexo 1) con una población de 3590 pacientes, de los cuales 3399 (94,7 %) provinieron del análisis de la base de datos SEER y 191 fueron estudiados en cohortes más pequeñas o casos individuales. Se identificaron diferencias significativas en la distribución de los subtipos histológicos, las estrategias terapéuticas y los resultados clínicos.

La distribución de los subtipos histológicos mostró una variabilidad considerable entre estudios. En varias series institucionales pequeñas, el rabdomiosarcoma alveolar (ARMS) fue el subtipo predominante, alcanzando hasta el 75 % de los casos. En contraste, otros estudios describieron una mayor proporción de rabdomiosarcoma embrionario (ERMS, hasta el 78 %) o pleomórfico (PRMS, hasta el 36 %). En los análisis poblacionales de mayor tamaño, como el estudio basado en la base de datos SEER, el subtipo pleomórfico emergió como el más frecuente en adultos, seguido del embrionario, mientras que el alveolar fue menos común, aunque consistentemente asociado a peor pronóstico.

Hasta un 87,5 % de los casos (7 de 8 individuos) presentaron recurrencia local y el mismo porcentaje de pacientes desarrolló metástasis, especialmente en pacientes con ARMS y niveles elevados de LDH (>400 U/L). Los síntomas más frecuentes fueron obstrucción nasal, epistaxis recurrente, dolor facial y anosmia.

El diagnóstico se realizó mediante estudios de imagen en todos los casos, con resonancia magnética (RM) y tomografía computarizada (TC) como herramientas principales. La confirmación histopatológica incluyó biopsia con inmunohistoquímica, con expresión de desmina y miogenina en la mayoría de los casos (reportado en 6 de 8 pacientes en el estudio de Lo et al. y en una proporción significativa de los 47 pacientes analizados por Saadi et al.). Además, se identificó la fusión PAX-FOXO1 en pacientes con ARMS, asociándose a un peor pronóstico (detectada en aproximadamente 2447 de 3399 pacientes analizados en la base de datos SEER según el estudio de Han et al.).

El tratamiento del RMS nasal en adultos fue predominantemente multimodal, combinando

cirugía, quimioterapia y radioterapia. De los 14 estudios analizados, la quimioterapia (QT) se utilizó en 13 estudios (93 %), ya sea sola o en combinación con cirugía y/o radioterapia. La radioterapia (RT) fue aplicada en 10 estudios (71,4 %), mientras que la radioterapia con protones (PRT) se empleó en 2 estudios (14,3 %), mostrando buenos resultados en control local y menor toxicidad. La cirugía (Cx) se realizó en 8 estudios (57,1 %), logrando márgenes negativos en el 100 % de los pacientes operados mediante cirugía endoscópica en un estudio. La inmunoterapia (IT) se utilizó en 3 estudios (21,4 %), mostrando respuestas parciales en pacientes con expresión del ligando de muerte programada 1 (PD-L1) y alta carga mutacional (TMB-H), un biomarcador asociado a mejor respuesta a inmunoterapia. Los fármacos empleados fueron nivolumab, toripalimab y anlotinib, con una supervivencia libre de progresión (PFS) de hasta 45 meses en un paciente con RMS pleomórfico metastásico.

En cuanto al subtipo histológico, el ARMS presentó las peores tasas de supervivencia, con una supervivencia global (OS) a 5 años del 28 %, mientras que el ERMS alcanzó el 50% en pacientes tratados con cirugía y radioterapia. En relación con el tratamiento quirúrgico, los pacientes con márgenes negativos (R0) mostraron una mayor supervivencia libre de enfermedad en comparación con aquellos con márgenes positivos. En cuanto a los marcadores moleculares, se identificó expresión de PD-L1 y niveles elevados de Ki-67 en ciertos casos, con respuestas variables a la inmunoterapia. La supervivencia global (OS) a 5 años osciló entre el 28 % y el 83 %, dependiendo del subtipo histológico, la extensión tumoral y el tratamiento recibido. En los pacientes tratados con PRT + QT, la OS alcanzó el 83 %, mientras que en aquellos con enfermedad metastásica la supervivencia cayó a 27 %.

DISCUSIÓN

La marcada heterogeneidad observada entre los estudios incluidos condiciona la interpretación

de los resultados y limita la posibilidad de establecer proporciones exactas de subtipos histológicos o estimaciones precisas de supervivencia. No obstante, esta variabilidad constituye en sí misma un hallazgo relevante, reflejo de la rareza de la enfermedad y de la ausencia de criterios uniformes de manejo en adultos, lo que refuerza la necesidad de estudios multicéntricos colaborativos.

El manejo del rhabdomyosarcoma nasal (RMSN) en adultos sigue representando un desafío clínico debido a su baja prevalencia y a su asociación con un pronóstico desfavorable. En los estudios analizados, el diagnóstico suele realizarse en estadios avanzados y, en algunas series, se han descrito tasas elevadas de recurrencia local y diseminación metastásica, que alcanzan hasta el 87,5 % de los casos [1].

El caso índice que motivó esta revisión presentaba extensión intracraneal y adenopatías cervicales en el momento del diagnóstico, hallazgos que reflejan la tendencia de esta entidad a diagnosticarse tardíamente y que se asocian a peor pronóstico.

Los hallazgos de esta revisión evidencian la variabilidad en la distribución de subtipos histológicos en adultos. Mientras que algunos estudios identificaron al rhabdomyosarcoma alveolar (ARMS) como el subtipo predominante en adultos (hasta 75 %) [1], otros mostraron una mayor proporción del subtipo embrionario (ERMS, hasta 78 %) [2] o pleomórfico (PRMS, hasta 36 %) [3]. Estas diferencias pueden estar influenciadas por la metodología de los estudios y factores poblacionales.

El ARMS se asoció con el peor pronóstico, con una supervivencia global (OS) a 5 años de solo el 28 % [4], mientras que el ERMS mostró mejores resultados (OS hasta 50 %) cuando se trató con cirugía y radioterapia [2]. Se observó que la afectación de la base del cráneo y el sistema nervioso central estuvo asociada con un mayor riesgo de recurrencia y una menor supervivencia, lo que subraya la importancia de una evaluación minuciosa de la extensión tumoral en el momento del diagnóstico y la planificación del tratamiento.

Por otro lado, el PRMS, aunque menos frecuente, mostró una respuesta parcial a la inmunoterapia en algunos casos [5], lo que podría abrir nuevas líneas de investigación.

El tratamiento multimodal sigue siendo el estándar para el manejo del RMS nasal en adultos, incluyendo cirugía, quimioterapia y radioterapia [6, 7]. Sin embargo, la efectividad de cada modalidad varía dependiendo del subtipo y la extensión del tumor [8].

En pacientes con tumores resecables, la cirugía endoscópica permitió obtener márgenes negativos (R0) en el 100 % de los casos reportados, mejorando la supervivencia libre de enfermedad [9], mientras que los pacientes con tumores avanzados o irresecables dependieron de estrategias no quirúrgicas [4]. La quimioterapia fue utilizada en el 93 % de los estudios, mayormente en combinación con otras terapias [6]; sin embargo, la respuesta en adultos sigue siendo inferior a la observada en niños, lo que sugiere la necesidad de esquemas más personalizados en esta población [8]. La radioterapia fue aplicada en el 71,4 % de los estudios, destacando la radioterapia de protones (PRT) como una alternativa prometedora en dos estudios, logrando una OS de hasta 83% en pacientes con localización desfavorable [10]. Aunque aún en etapas iniciales, la inmunoterapia se utilizó en el 21,4 % de los estudios, con respuestas parciales en pacientes con expresión de PD-L1 y alta carga mutacional (TMB-H) [11], reportándose hasta 45 meses sin recurrencia en un paciente tratado con nivolumab [5].

Estos hallazgos sugieren que los avances terapéuticos han mejorado la supervivencia en ciertos subgrupos de pacientes, pero que aún se requieren estudios prospectivos que permitan evaluar la eficacia de estos tratamientos en el RMS nasal en adultos [6, 12]. A pesar de estos avances, las tasas de recurrencia local siguieron siendo elevadas, particularmente en pacientes con ARMS, lo que sugiere la necesidad de estrategias terapéuticas más efectivas y personalizadas, incluyendo el desarrollo de enfoques que integren nuevas terapias dirigidas

o combinaciones más agresivas en subgrupos de alto riesgo.

Otro de los principales problemas en la literatura revisada es la variabilidad metodológica en los estudios, con muestras pequeñas y diseños retrospectivos que dificultan la generalización de los resultados [6]. Además, algunos estudios combinan datos de pacientes adultos y pediátricos, lo que puede sesgar las conclusiones en el grupo de adultos [8].

La falta de ensayos clínicos aleatorizados en adultos es otra limitación importante [6]. Para abordar este problema, sería fundamental la creación de estudios multicéntricos que analicen intervenciones terapéuticas de manera más sistemática [12].

Desde el punto de vista de la práctica clínica actual en ORL oncológica, estos hallazgos refuerzan la necesidad de un manejo multidisciplinar en centros con experiencia en sarcomas de cabeza y cuello, así como la consideración precoz de técnicas avanzadas como la radioterapia con protones en casos seleccionados [7, 11, 13]. Asimismo, en pacientes adultos con enfermedad avanzada o refractaria, debería valorarse la inclusión en ensayos clínicos, particularmente aquellos que exploren estrategias de inmunoterapia o tratamientos personalizados basados en marcadores moleculares [6, 12, 14].

Por último, la incorporación de biomarcadores moleculares en los estudios clínicos permitirá desarrollar estrategias terapéuticas más precisas, particularmente en el contexto de la inmunoterapia. La secuenciación de nueva generación (NGS) ha identificado perfiles moleculares asociados a una mejor respuesta a inmunoterapia, como la TMB-H y la inestabilidad microsatelital alta (MSI-H); sin embargo, estos hallazgos deben validarse en estudios prospectivos con mayor número de pacientes [15].

CONCLUSIONES

El rabdomiosarcoma nasal (RMSN) en adultos es una enfermedad poco frecuente y agresiva que requiere un enfoque terapéutico multimodal y personalizado. Su baja prevalencia y la

inespecificidad de los síntomas iniciales, como obstrucción nasal, epistaxis recurrente y dolor facial, favorecen su diagnóstico en estadios avanzados, con afectación de estructuras críticas como la base del cráneo y los senos paranasales, lo que complica el manejo clínico y empeora el pronóstico.

Los subtipos histológicos influyen significativamente en la evolución de la enfermedad. En esta revisión, se identificó variabilidad en su distribución: algunos estudios reportaron ARMS como el más frecuente (hasta 75 %), mientras que otros encontraron mayor prevalencia de ERMS (hasta 78 %) o PRMS (hasta 36 %).

El ARMS se asoció con la peor supervivencia, con una OS a 5 años de 28 %, reflejando su agresividad y tendencia a la metástasis. En contraste, el ERMS mostró una OS superior (hasta 50 %), especialmente cuando se logró resección quirúrgica con márgenes negativos.

El tratamiento multimodal sigue siendo el estándar en RMSN, combinando cirugía, quimioterapia y radioterapia según la extensión tumoral. La cirugía endoscópica ha demostrado ser efectiva en tumores resecables, logrando márgenes negativos (R0) en el 100 % de los casos reportados y una mayor supervivencia libre de enfermedad. La radioterapia con protones (PRT) ha emergido como una opción relevante en casos con compromiso anatómico crítico, alcanzando una OS de hasta 83 %. La quimioterapia se usó en el 93 % de los estudios, aunque con respuesta inferior en adultos respecto a niños, resaltando la necesidad de esquemas personalizados. La inmunoterapia se empleó en el 21,4 % de los estudios, con respuestas parciales en pacientes con PD-L1 y TMB-H. En un caso, el tratamiento con nivolumab logró una supervivencia libre de recurrencia de 45 meses en un paciente con RMS pleomórfico metastásico.

A pesar de los avances terapéuticos, la recurrencia local y la limitada respuesta a la quimioterapia siguen siendo barreras en el tratamiento del RMSN en adultos. La OS a 5 años varía según el subtipo histológico y el tratamiento recibido, con

valores inferiores al 30% en ARMS y hasta 50 % en ERMS con tratamiento multimodal. En enfermedad metastásica, la OS se redujo al 27 %, destacando la necesidad de nuevas estrategias terapéuticas.

La falta de ensayos clínicos específicos para adultos limita la generalización de los hallazgos. La heterogeneidad en los tratamientos y el tamaño muestral reducido dificultan la formulación de directrices clínicas definitivas.

Para optimizar el manejo del RMSN, es fundamental desarrollar ensayos clínicos multicéntricos y colaborativos que permitan evaluar estrategias terapéuticas de manera más sistemática. La incorporación de biomarcadores moleculares, mediante técnicas como la secuenciación de nueva generación (NGS), será clave para identificar perfiles tumorales y guiar tratamientos, especialmente en inmunoterapia y terapias dirigidas.

Finalmente, la colaboración internacional es crucial para generar datos robustos que optimicen el tratamiento de esta patología, mejorando la calidad de vida y la supervivencia de los pacientes.

BIBLIOGRAFÍA

- Lo WL, Huang WH, Yeh CF. Clinicopathological features and prognostic factors of sinonasal rhabdomyosarcoma. *In Vivo*. 2022 Jan 1;36(6):2965–72. <https://doi.org/10.21873/invivo.13040>
- Radzikowska J, Kukwa W, Kukwa A, Czarnecka AM, Kawecki M, Lian F, et al. Management of pediatric head and neck rhabdomyosarcoma: A case-series of 36 patients. *Oncology Letters*. 2016 Sep 1;12(5):3555–62. <https://doi.org/10.3892/ol.2016.5072>
- Saadi M, Letaief F, Gabsi A, Mokrani A, Meddeb K, Mezlini A. Clinical and pathological characteristics, treatment outcome and prognostic factors in adult rhabdomyosarcoma: a monocentric retrospective study. *Pan African Medical Journal*. 2022 Jan 1;41:246. <https://doi.org/10.11604/pamj.2022.41.246.31425>
- 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. *BMJ*. 2021 Mar 29;372:n71. <https://doi.org/10.1136/bmj.n71>
- Kana LA, Smith JD, Bellile EL, Chugh R, McKean EL. Surgical management of rhabdomyosarcoma of the nasal cavity and paranasal sinuses: analysis of operative indications, settings, and outcomes. *Journal of Neurological Surgery Part B Skull Base*. 2021 Nov 8;83(04):350–8. <https://doi.org/10.1055/s-0041-1736590>
- Liu J, Liu P, Gong F, Tian Y, Zhao X. Case report: A PD-L1-Positive patient with pleomorphic rhabdomyosarcoma achieving an impressive response to immunotherapy. *Frontiers in Immunology*. 2022 Mar 17;13:815598. <https://doi.org/10.3389/fimmu.2022.815598>
- Zarrabi A, Perrin D, Kavoosi M, Sommer M, Sezen S, Mehrbod P, et al. Rhabdomyosarcoma: Current therapy, challenges, and future approaches to treatment strategies. *Cancers*. 2023 Nov 2;15(21):5269. <https://doi.org/10.3390/cancers15215269>
- Chiu R, Dreikorn S, Peng S. Metastasis of a primary sinonasal alveolar rhabdomyosarcoma to the testicle in an adult patient. *American Journal of Clinical Pathology*. 2022 Nov 1;158(Supplement_1):S38. <https://doi.org/10.1093/ajcp/aqac126.071>
- Rhee DS, Rodeberg DA, Baertschiger RM, Aldrink JH, Lautz TB, Grant C, et al. Update on pediatric rhabdomyosarcoma: A report from the APSA Cancer Committee. *Journal of Pediatric Surgery*. 2020 Jun 18;55(10):1987–95. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2020.06.015>
- Lofgren DH, Gillette B, Knight BB, Succar E. Induction chemotherapy prior to endoscopic resection of alveolar rhabdomyosarcoma. *Cureus*. 2023 Nov 13;15(11):e48761. <https://doi.org/10.7759/cureus.48761>
- Parekh AD, Indelicato DJ, Vega RBM, Rotondo RL, Morris CG, Bradfield S, et al. Proton radiotherapy for infant rhabdomyosarcoma: Rethinking young age as an adverse prognostic factor. *Radiotherapy and Oncology*. 2021 May 21;163:215–20. <https://doi.org/10.1016/j.radonc.2021.05.017>

12. Han D, Li C, Li X, Huang Q, Xu F, Zheng S, et al. Prognostic Factors in Patients with Rhabdomyosarcoma Using Competing-Risks Analysis: A Study of Cases in the SEER Database. *Journal of Oncology*. 2020 Sep 17;2020:1–13. <https://doi.org/10.1155/2020/2635486>
13. Hamou M, Amrani YE, Lachkar A, Eabdenbitsen A, Elayoubi F, Ghailan R. Adult embryonal rhabdomyosarcoma of the nose and paranasal sinuses misdiagnosed as an orbital cellulitis: a case report. *PAMJ Clinical Medicine*. 2021 Jan 1;5. <https://doi.org/10.11604/pamj-cm.2021.5.3.27187>
14. Sun X, Wang X, Zhou J, Xu Y, Zhang H, Xu M, et al. Next generation sequencing predicting clinical effect of immunotherapy on adult rhabdomyosarcoma patient: A case report. *Medicine*. 2023 May 26;102(21):e33858. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000033858>
15. Ferrari A, Gatz SA, Minard-Colin V, Alaggio R, Hovsepyan S, Orbach D, et al. Shedding a Light on the Challenges of Adolescents and Young Adults with Rhabdomyosarcoma. *Cancers*. 2022 Dec 9;14(24):6060. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/36551545/>

ANEXO I

Tabla 1. Estrategias terapéuticas y factores pronósticos en el rabdomiosarcoma nasal.

Autor	Año	País	N	Intervención	Resultados
Lo et al	2022	Taiwán	8	QT + RT ± cirugía	75 % alveolar; 87,5 % recurrencia local; 87,5 % metástasis, peor pronóstico con LDH >400 U/l y desmin/MyoD1 negativos
Radzikowska J et al	2016	Polonia	36	Cirugía + QT ± RT	67 % parameningeo, 78 % embrionario, 5-años OS 50 % cirugía primaria, 46,7 % cirugía por recurrencia
Saadi M et al	2022	Túnez	47	Cirugía + QT ± RT	70 % localizado, 30 % metastásico, 36 % pleomórfico, 5-años OS: 35 % localizado, 27 % metastásico, cirugía y localización no-extremidad con mejor pronóstico
Kana LA et al	2022	EE.UU.	29	Cirugía + QT ± RT	72 % RMS alveolar, cirugía mejoró DMFS (HR 0,32, p=0,05), alto riesgo de recurrencia (72 %), 5-años OS 28%
Liu et al	2022	China	1	Cirugía + QT + IT (nivolumab)	RMS pleomórfico metastásico, fracaso de QT, respuesta parcial con IT, 45 meses libre de recurrencia
Zarrabi A et al	2023	Multinacional (Turquía, Canadá, Irán, Polonia, EE.UU., España, Singapur)	Revisión	QT + RT + cirugía, nuevos enfoques terapéuticos (inmunoterapia, modelos bioingeniería)	Supervivencia 5 años <30 % en RMS de alto riesgo, terapias actuales con toxicidad significativo, estrategias emergentes en investigación
Chiu R et al	2022	EE.UU.	1	QT + RT + cirugía	RMS alveolar sinonasal en adulto, respuesta inicial a QT+RT, metástasis testicular tras 2 años
Rhee DS et al	2020	EE.UU., Canadá	Revisión	QT + RT + cirugía, nuevas estrategias de manejo	FOXO1 como mejor predictor de pronóstico, pobre adherencia a guías quirúrgicas, terapias emergentes para RMS pediátrico
Lofgren DH	2023	EE.UU.	1	IC + cirugía endoscópica + QT + PBT	RMS alveolar parameningeo, reducción tumoral con IC, márgenes negativos tras resección endoscópica, 18 meses sin recurrencia
Parekh AD et al	2021	EE.UU.	37	PRT + QT ± cirugía	5-años OS 83 %, LC 83 %, PFS 78 %; peor LC y OS en sitios favorables; nasal ala recategorizado como sitio desfavorable mejoró pronóstico
Han D et al	2020	China	3399	Análisis de factores pronósticos usando modelo de riesgos competitivos (SEER)	5-años OS 60,1 %, peor pronóstico en edad avanzada, sitios no favorables, tumores grandes, estadio distante, histología alveolar
Hamou M et al	2020	Marruecos	1	QT + RT	RMS embrionario nasal con invasión orbitaria, mal pronóstico, paciente falleció tras 2 meses de tratamiento
Sun et al	2023	China	1	Cirugía + QT + RT + IT (toripalimab + anlotinib)	RMS metastásico resistente a QT, NGS reveló TMB-H/MSI-H/PD-L1+, respuesta parcial con IT, PFS >17 meses
Ferrari A et al	2022	Multinacional (Italia, Reino Unido, Francia, Armenia, Países Bajos)	Revisión (sin pacientes)	Análisis de brecha en supervivencia AYA vs. pediátricos; barreras en tratamiento, acceso a ensayos clínicos	Peor supervivencia en AYA (57,1 % vs. 77,9 %), retrasos en diagnóstico, menor inclusión en ensayos, diferencias biológicas

Abreviaturas: AYA (Adolescente y adulto joven), DMFS (Supervivencia libre de metástasis a distancia), EFS (Supervivencia libre de eventos), HR (Razón de riesgo), IC (Quimioterapia de inducción), IT (Inmunoterapia), LC (Control local), LDH (Lactato deshidrogenasa), MSI-H (Inestabilidad microsatelital alta), N (Número de pacientes en el estudio), NGS (Secuenciación de nueva generación), OS (Supervivencia global), PAX-FOXO1 (Fusión génica característica de RMS alveolar), PBT (terapia con protones), PD-L1+ (Expresión positiva de PD-L1), PFS (Supervivencia libre de progresión), PRT (Radioterapia con protones), QT (Quimioterapia), RMS (Rabdomiosarcoma), RT (Radioterapia) y TMB-H (Alta carga mutacional).

HEMANGIOMA TIMPÁNICO: PRESENTACIÓN DE UN CASO

Timpanic hemangioma: a case report

Jorge BEDIA-GARCÍA ; Cristina CORDERO-CIVANTOS ; Judit PÉREZ-SAEZ; Luis Arturo RIVAS-SALAS ; Ana Isabel NAVAZO-EGUÍA 

Hospital Universitario de Burgos. Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Burgos. España

Correspondencia: jbedia@saludcastillayleon.es

Fecha de recepción: 11 de marzo de 2025

Fecha de aceptación: 19 de mayo de 2025

Fecha de publicación: 29 de mayo de 2025

Fecha de publicación del fascículo: 31 de marzo de 2026

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-SA 4.0. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-CompartirIgual 4.0 Internacional

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

RESUMEN: Introducción: Los tumores de oído medio, y en especial los hemangiomas, son entidades poco frecuentes. El hemangioma de oído medio es un tumor benigno de origen vascular, de presentación en varones mayores, con una presentación clínica variable y diagnóstico complicado. Es por ello que su presentación en una mujer, joven, y embarazada, representa un caso excepcional, no encontrado previamente en la literatura. Objetivo: El objetivo de este artículo es presentar el caso de una paciente con un hemangioma cavernoso en el oído medio, destacando su sintomatología, diagnóstico y tratamiento. Descripción del caso: Una paciente de 42 años, embarazada y sin antecedentes médicos relevantes, acudió con parálisis facial izquierda y síntomas óticos. En la exploración se observó una tumoración rojiza en el oído medio, que tras varias pruebas complementarias, se orientó como sugestiva de glomus timpánico. Tres meses después, los síntomas óticos empeoraron, lo que llevó a una intervención quirúrgica con extirpación de la masa con diagnóstico definitivo de hemangioma cavernoso, confirmado mediante análisis histológico. Hay que destacar que los síntomas de la paciente se resolvieron, quedando además con una audición sin alteraciones tras la intervención. Conclusiones: El hemangioma de oído medio es raro y puede presentar síntomas como hipoacusia y acúfeno. La tomografía computarizada es esencial para la orientación diagnóstica. El diagnóstico diferencial incluye el glomus timpánico entre otras entidades, por lo que siempre debe tenerse en cuenta ante el diagnóstico diferencial de masas timpánicas o de oído medio, especialmente

en casos atípicos. La intervención quirúrgica, con resección completa del tumor, es fundamental para un diagnóstico definitivo y tratamiento exitoso.

PALABRAS CLAVE: glomus; hemangioma; tímpano; oído medio; caso clínico

SUMMARY: Introduction: Middle ear tumors, particularly hemangiomas, are rare entities. Middle ear hemangioma is a benign tumor of vascular origin, typically occurring in older males, with variable clinical presentation and challenging diagnosis. Therefore, its occurrence in a young, pregnant woman represents an exceptional case, not previously reported in the literature. Objective: The objective of this article is to present the case of a patient with a cavernous hemangioma in the middle ear, highlighting her symptoms, diagnosis, and treatment. Case Description: A 42-year-old pregnant woman with no relevant medical history presented with left facial paralysis and otologic symptoms. Examination revealed a reddish mass in the middle ear, initially suggestive of a glomus tympanicum based on complementary tests. Three months later, the otologic symptoms worsened, leading to surgical intervention and removal of the mass. A definitive diagnosis of cavernous hemangioma was confirmed through histological analysis. Notably, the patient's symptoms resolved, and her hearing remained unaffected following the procedure. Conclusions: Middle ear hemangioma is rare and may present with symptoms such as hearing loss and tinnitus. Computed tomography is essential for diagnostic guidance. The differential diagnosis includes glomus tympanicum among other entities and should always be considered when evaluating tympanic or middle ear masses, especially in atypical cases. Surgical intervention with complete tumor resection is crucial for definitive diagnosis and successful treatment.

KEYWORDS: glomus; hemangioma; tympanic membrane; middle ear; case report

INTRODUCCIÓN

El hemangioma de oído medio constituye una entidad poco frecuente, de presentación variable y diagnóstico complejo. Se presenta con mayor frecuencia en varones en la sexta década de la vida, destacando por ello, que el caso presentado sea el de una mujer, joven, y embarazada (sin precedentes en la literatura). Se trata de un tumor benigno de estirpe vascular, cuya etiología (tanto origen como de desarrollo) es aún una incógnita [1, 2].

A nivel histológico, se diferencian: hemangiomas capilares, cavernosos y mixtos. Los hemangiomas capilares están compuestos por pequeños vasos sanguíneos anormales dispuestos en un patrón similar al de los capilares y son comunes en bebés y niños pequeños. En cambio, los hemangiomas cavernosos están formados por canales vasculares de diferentes tamaños recubiertos por células endoteliales con grandes espacios vasculares cavernosos y son más comunes en personas mayores [3].

Aparecen en el área de cabeza y cuello con relativa frecuencia, sobre todo en piel y mucosas de población pediátrica [3].

Su presentación es poco frecuente en el oído. A este nivel, puede aparecer en el conducto auditivo externo, hueso temporal, oído medio y conducto auditivo interno [2].

El objetivo de este artículo es el de presentar el caso de una paciente con un hemangioma cavernoso de oído medio, resaltando la sintomatología, diagnóstico y tratamiento de esta entidad para, con su conocimiento, ser capaces de sospecharlo y por lo tanto detectarlo y tratarlo correctamente [1, 2, 3, 4, 5].

DESCRIPCIÓN

Una paciente de cuarenta y dos años, embarazada (en el tercer trimestre de gestación), sana y sin otros antecedentes médicos de interés, acude al Servicio de Urgencias por parálisis facial izquierda de aparición brusca. Además, refiere sensación de taponamiento

ótico izquierdo, con hipoacusia y acúfeno pulsátil ipsilaterales. La paciente no presentaba antecedentes familiares o psicosociales relevantes.

Durante la exploración física pertinente, en la otoscopia izquierda se aprecia una tumoración rojiza intratimpánica tras el cuadrante anteroinferior.

La audiometría tonal liminar refleja en el oído izquierdo una caída aislada en 4000 Hercios (Hz). Las demás frecuencias presentan umbrales por encima de 20 decibelios (dB) (Figura 1). La impedanciometría muestra una curva A de Jerger, y ausencia de reflejo estapedial.

Todas las pruebas son normales en el oído derecho.

Se diagnostica a la paciente de parálisis facial periférica izquierda, se instaura tratamiento para la misma y se solicita una tomografía computarizada (TC) de peñascos para estudiar mejor esa masa intratimpánica, con la que se toma al inicio una actitud expectante.

La TC revela una tumoración en hipo-meso-timpano de oído izquierdo que contacta con la cadena osicular y con la membrana timpánica, y que no erosiona estructuras óseas. Se observa protección ósea del nervio facial (Figura 2).

A nivel morfológico, desde radiología la describen como sugestiva de glomus timpánico izquierdo.

Pasados tres meses, en la consulta de revisión, la parálisis facial ha quedado resuelta, pero los

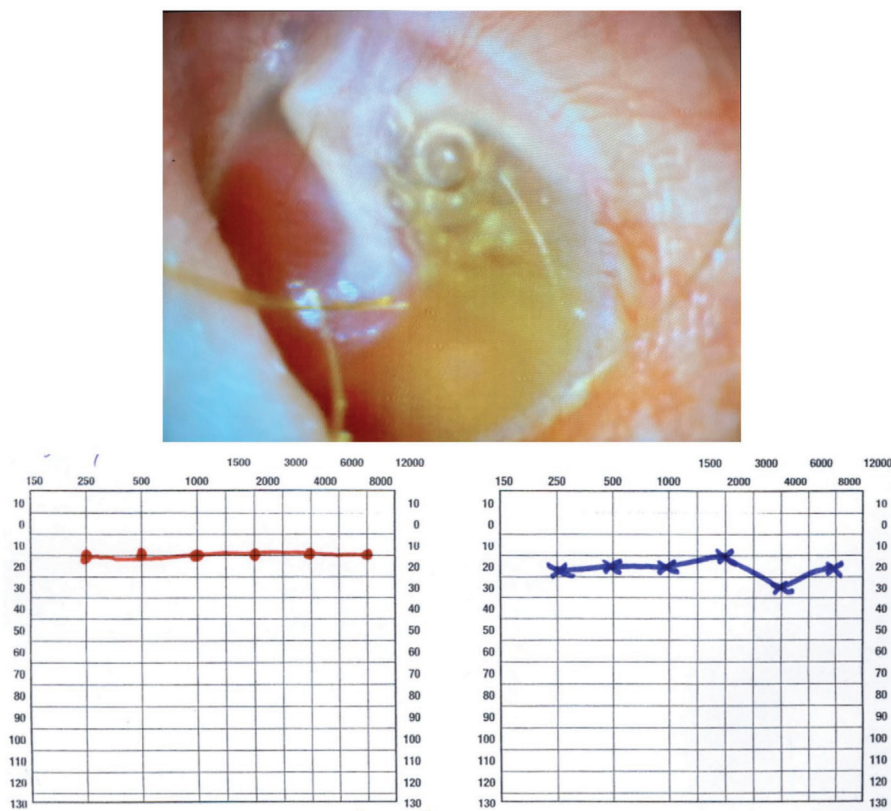


Figura 1. Otoscopia y Audiometría tonal liminar al diagnóstico

síntomas óticos persisten, incluso han empeorado. A la exploración: se aprecia en la otoscopia una ocupación mucosa de todo el oído medio izquierdo, junto con la masa rojiza previamente descrita (Figura 1). Además, la impedanciometría ahora refleja una curva B de Jerger.

En vistas de la obstrucción y disfunción tubárica que sugiere la exploración, se sospecha un crecimiento de la tumoración. Teniendo esto en cuenta, y contando con que la paciente ya ha dado a luz en este momento, se propone la intervención quirúrgica. La paciente acepta.

Se lleva a cabo una timpanotomía exploradora endoaural endoscópica izquierda, con extirpación

de la lesión vascular, envío para análisis diferido de la misma, y reconstrucción timpánica con injerto de cartílago y pericondrio tragal.

El examen anatomopatológico revela alteraciones histológicas compatibles con las de un hemangioma de estirpe cavernosa.

Seis meses tras la intervención, la paciente cuenta persistencia del acúfeno izquierdo. Presenta una audición del oído izquierdo con umbrales por encima de los 30dB en todas las frecuencias, una curva A de Jerger en la impedanciometría, y ha recuperado el reflejo estapedial del oído izquierdo. No se observa recurrencia de la lesión a nivel otoscópico (Figura 2).

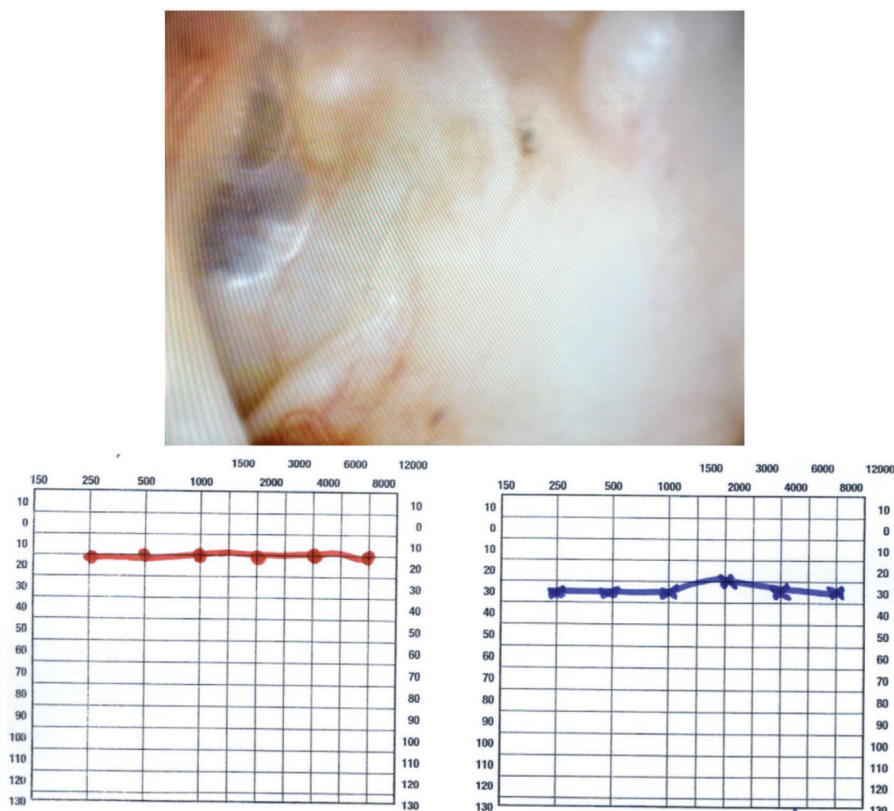


Figura 2. Otoscopia y Audiometría tonal liminar 6 meses tras la cirugía

Durante todo el proceso, la paciente acudió rigurosamente a sus citas, cumpliendo todos los tratamientos pautados. Afortunadamente, no hubo afectos adversos, complicaciones quirúrgicas ni postquirúrgicas (inmediatas ni diferidas).

DISCUSIÓN

El hemangioma de oído es una tumoración vascular benigna y rara. Aparece en hombres más que en mujeres (ratio 2:1), y sobre todo lo hace en las sexta y séptima década de la vida [1]. Por ello, la aparición en una mujer, joven y embarazada, supone un caso extremadamente inusual y sin precedentes en la literatura disponible. Hoy en día, se registran menos de 35 casos en dicha literatura [2].

Puede presentarse como un hallazgo incidental en la exploración, o con manifestaciones clínicas como: hipoacusia, acúfeno, sensación de ocupación o taponamiento ótico, otorrea, etcétera. La presentación en oído medio y externo es extremadamente infrecuente [5].

La gran mayoría de hemangiomas timpánicos o de conducto auditivo externo son de estirpe cavernosa, y son raros los de tipo capilar, algo que se corresponde con la distribución etaria que sigue cada uno de ellos [3].

En este caso, la paciente presenta un hemangioma cavernoso del oído medio, que involucra al tímpano, pero no al conducto auditivo externo. Llama poderosamente la atención la afectación clínica inicial del nervio facial coincidiendo con la clínica auditiva, y el hallazgo del hemangioma en la otoscopia. Sobre todo demostrándose más tarde a través de las pruebas de imagen y la exploración quirúrgica la integridad e independencia de dicho nervio con respecto al tumor, y por lo tanto, lo fortuito de ese hallazgo. Esto es relevante, pues una afectación inicial del nervio facial podría llevar a confusión a la hora de plantear posibles diagnósticos diferenciales.

Para el correcto diagnóstico de estas tumores es necesario solicitar una TC de peñascos,

que representa la prueba de imagen de elección, gracias a su capacidad para valorar la afectación ósea, sobre todo de la cadena osicular [1, 2, 5].

Sería conveniente, si hay disponibilidad, completar el estudio de imagen con una Resonancia Magnética y una Angiografía, sobre todo si interesa valorar la afectación nerviosa y nutrición vascular del tumor [1].

El hemangioma timpánico, presenta como principal diagnóstico diferencial al glomus timpánico, aunque siempre hay que descartar otras entidades (como malformaciones arteriovenosas y una carótida interna aberrante, entre otras). La única manera de distinguir el hemangioma de todas las demás alternativas diagnósticas es mediante análisis histológico. Son las características anatómopatológicas las que lo diferencian, por lo que es imprescindible para un diagnóstico definitivo la biopsia mediante extirpación completa de la tumoración [1-5].

Así, el tratamiento de elección en este tipo de lesiones (sobre todo si son sintomáticas) sigue siendo la cirugía, con extirpación completa [1-5].

El abordaje y técnica quirúrgica queda a decisión del cirujano, y suele depender de la extensión y afectación de estructuras del oído medio [5].

En este caso, pudo llevarse a cabo una resección completa por vía endoaural endoscópica, con posterior timpanoplastia de reconstrucción (sólo fue necesaria la reconstrucción de la membrana timpánica con injerto).

Como limitación en este reporte de caso, habría que resaltar la incidentalidad de la parálisis facial al inicio del cuadro clínico, que generó cierta confusión al inicio del cuadro clínico. De la misma manera, el embarazo de la paciente retrasó las consultas de revisión, priorizándose su proceso de gestación y lactancia iniciales sobre la sintomatología ótica.

Hay grupos de investigación trabajando para desarrollar posibles alternativas, como la radioterapia, pero estas se encuentran todavía en fase experimental [1].

CONCLUSIONES

A pesar de ser una entidad poco frecuente, conocer las distintas presentaciones, sospecha diagnóstica, así como las pruebas complementarias y diagnóstico definitivo de un hemangioma de oído medio, debe formar parte del abanico de conocimientos de un especialista en Otorrinolaringología.

BIBLIOGRAFÍA

1. Marzouqi S, Roa H. Hemangioma del conducto auditivo externo y del hueso temporal: informe de un caso y revisión exhaustiva de la literatura. *Ear Nose Throat J* [Internet]. 2022; 103(12):NP720–6. Disponible en: <https://doi.org/10.1177/01455613211029795>
2. Saha J, Sarkar A, Chowdhury S, Debnath T. Hemangioma capilar del conducto auditivo externo que se extiende al oído medio y la cavidad mastoidea: informe de un caso poco frecuente con revisión de la literatura. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* [Internet]. 2021; 74(Suppl 3):3713–7. Disponible en: <https://doi.org/10.1007/s12070-021-02510-2>
3. Mevio E, Cazzaniga M, Mullace M, Paolotti D. Hemangioma of the tympanic membrane: a case and a review of the literature. *Case Rep Otolaryngol* [Internet]. 2012; 2012:402630. Disponible en: <https://doi.org/10.1155/2012/402630>
4. Álvarez-Buylla Blanco M, Vázquez Barro JC, López Amado M, Santiago Freijanes MP, Martínez Vidal J. Hemangioma capilar de oído medio. *Acta Otorrinolaringol Esp* [Internet]. 2011; 62(1):746. Disponible en: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0001651910000324>
5. Huang Q, Qin H, Li L, Gong L, Lv Y. Cavernous hemangioma of the external auditory canal involving the tympanic membrane: Case report and literature review. *Ear Nose Throat J* [Internet]. 2025; 1455613241312072. Disponible en: <https://doi.org/10.1177/01455613241312072>

