

ORL

Volumen 14 • Número 1 • 2023

OTORRINOLARINGOLOGÍA
DOCUMENTACIÓN Y METODOLOGÍA DE INVESTIGACIÓN



eISSN: 2444-7986
DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.2023141>
<https://revistas.usal.es/index.php/2444-7986/>



Ediciones Universidad
Salamanca

EQUIPO DE REDACCIÓN

DIRECTOR

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

SECRETARIA DE DIRECCIÓN

Tránsito FERRERAS FERNÁNDEZ, Universidad de Salamanca, España

CONSEJO DE REDACCIÓN

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

CONSEJO ASESOR

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

ÍNDICE

EDITORIAL

Leo, comprendo, escribo
José Luis PARDAL-REFOYO 5

ARTÍCULO ORIGINAL

Sordera súbita idiopática: factores pronóstico y resultados del tratamiento de rescate con dexametasona intratimpánica
José Ignacio BENITO-OREJAS; Jesús Eduardo RAMÍREZ-SALAS; Eduardo Antonio MENA-DOMÍNGUEZ; Victoria DUQUE-HOLGUERA; María Fe MUÑOZ-MORENO; Jaime SANTOS-PÉREZ 9

Tratamiento quirúrgico de la patología tumoral de la glándula parótida. Estudio descriptivo de 263 parotidectomías
María del Mar MARTÍNEZ-RUIZ-COELLO; Estefanía HERNÁNDEZ-GARCÍA; Estefanía MIRANDA-SÁNCHEZ; Cristina GARCÍA-GARCÍA; Óscar ARENAS-BRÍTEZ; Guillermo PLAZA-MAYOR 25

ARTÍCULO DE REVISIÓN

Patología del seno maxilar y su relación con la patología y los tratamientos dentales. Revisión sistemática
María AREIZAGA-MADINA; Beatriz PARDAL-PELÁEZ; Javier MONTERO 35

Dehiscencia de pared anterior de conducto auditivo externo con afectación de articulación temporomandibular tras cirugía de exóstosis. Revisión sistemática
Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN; Patricia CORRIOLS-NOVAL; Eugenia LÓPEZ-SIMÓN; Belén SALVATIERRA-VICARIO; Ramón COBO-DÍAZ; Yaiza GARCÍA-IBÁÑEZ; Yolanda LONGARELA-HERRERO 55

Linfoma MALT de glándula parótida. Revisión sistemática
Guillermo FERNÁNDEZ-GARCÍA; Carmen SALOM-COVEÑAS 63

CASO CLÍNICO

Dehiscencia de pared anterior de conducto auditivo externo con afectación de articulación temporomandibular tras cirugía de exóstosis. Descripción de un caso clínico
Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN; Patricia CORRIOLS-NOVAL; Eugenia LÓPEZ-SIMÓN; Belén SALVATIERRA-VICARIO; Ramón COBO-DÍAZ; Yaiza GARCÍA-IBÁÑEZ; Yolanda LONGARELA-HERRERO 75

Linfoma MALT de glándula parótida. Descripción de un caso
Guillermo FERNANDEZ GARCIA; Carmen SALOM-COVEÑAS 81

TABLE OF CONTENTS

EDITORIAL

I read, I understand, I write
José Luis PARDAL-REFOYO 5

ORIGINAL ARTICLE

Idiopathic sudden sensorineural hearing loss: prognostic factors and outcomes of salvage treatment with intratympanic dexamethasone
José Ignacio BENITO-OREJAS; Jesús Eduardo RAMÍREZ-SALAS; Eduardo Antonio MENA-DOMÍNGUEZ; Victoria DUQUE-HOLGUERA; María Fe MUÑOZ-MORENO; Jaime SANTOS-PÉREZ 9

Surgical treatment of tumor pathology of the parotid gland. Descriptive study of 263 parotidectomies
María del Mar MARTÍNEZ-RUIZ-COELLO; Estefanía HERNÁNDEZ-GARCÍA; Estefanía MIRANDA-SÁNCHEZ; Cristina GARCÍA-GARCÍA; Oscar ARENAS-BRÍTEZ; Guillermo PLAZA-MAYOR 25

REVIEW

Maxillary sinus pathology and its relationship with pathology and dental treatments. Systematic review
María AREIZAGA-MADINA; Beatriz PARDAL-PELÁEZ; Javier MONTERO 35

Dehiscence of the anterior wall of the external auditory canal with involvement of the temporomandibular joint after exostosis surgery. Systematic review
Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN; Patricia CORRIOLS-NOVAL; Eugenia LÓPEZ-SIMÓN; Belén SALVATIERRA-VICARIO; Ramón COBO-DÍAZ; Yaiza GARCÍA-IBÁÑEZ; Yolanda LONGARELA-HERRERO 55

MALT lymphoma of the parotid gland. Systematic review
Guillermo FERNÁNDEZ-GARCÍA; Carmen SALOM-COVEÑAS 63

CLINICAL CASE

Dehiscence of the anterior wall of the external auditory canal with involvement of the temporomandibular joint after exostosis surgery. Description of a clinical case
Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN; Patricia CORRIOLS-NOVAL; Eugenia LÓPEZ-SIMÓN; Belén SALVATIERRA-VICARIO; Ramón COBO-DÍAZ; Yaiza GARCÍA-IBÁÑEZ; Yolanda LONGARELA-HERRERO 75

MALT linfoma of the parotid gland. Case report
Guillermo FERNANDEZ GARCIA; Carmen SALOM-COVEÑAS 81

LEO, COMPRENDO, ESCRIBO

I Read, I Understand, I Write

José Luis PARDAL-REFOYO 

Hospital Universitario de Salamanca. Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Universidad de Salamanca. Facultad de Medicina. Departamento de Cirugía. IBSAL. Director de Revista ORL.

Correspondencia: jlpardal@usal.es

Fecha de publicación: 28 de febrero de 2023

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

Al inicio del pasado año reflexionamos sobre una de las funciones clave de *Revista ORL* como herramienta docente en el complejo mundo editorial [1] con sus amenazas y oportunidades. Estimular a los nuevos autores a publicar sus investigaciones, ayudar a mejorar su calidad, orientarles en el proceso de edición y difundir los informes de investigación han sido nuestras tareas.

Durante 2022 se actualizó el sistema de gestión editorial a una nueva versión de OJS (*Open Journal Systems*) [2] con nuevo formato y funcionalidades. En esta línea probamos la incorporación de vídeos de las presentaciones orales del congreso anual de la Sociedad Otorrinolaringológica de Castilla y León, Cantabria y La Rioja, como documentación

complementaria en el suplemento que recoge la actividad del congreso [3]. El esfuerzo realizado por los técnicos de Ediciones Universidad de Salamanca de un lado y los autores por otro ya que supone un cambio en el formato habitual, ha merecido la pena y los resultados hablan por sí mismos. Este formato abre nuevas posibilidades para la publicación de artículos al poder incluir vídeos originales explicativos sobre los contenidos del artículo o sobre técnicas quirúrgicas e iremos invitando a los autores a que mejoren la comunicación de sus artículos con vídeos explicativos.

Para este 2023 nos proponemos continuar trabajando en nuestra estrategia de acceso abierto que progresivamente hemos desarrollado estos

años mejorando el acceso a los datos de las investigaciones publicadas.

El camino que va abriendo la inteligencia artificial (IA) con un desarrollo en progresión exponencial, en la aplicación práctica está suponiendo cambios en cada una de las etapas del proceso de edición, desde la recepción de artículos, la revisión a la publicación. Los procedimientos más complejos serán auxiliados con aplicaciones de IA diseñadas expresamente para funciones concretas. Tal vez la revisión del artículo, su autenticidad, la veracidad de la investigación, la comprobación de los datos y de la bibliografía citada, sean las tareas en las que los revisores tienen mayor dificultad.

Por ello el acceso a los datos de la investigación, a su matriz de datos, es una de las claves para facilitar la revisión del artículo, la reevaluación por otros investigadores y lectores que así podrán revisar y replicar los resultados obtenidos y publicados por los autores.

Por otro lado, el empleo de aplicaciones de IA durante el proceso editorial facilitará la revisión del artículo y ayudará a mejorar su presentación y contenido.

El título de este editorial no es casual: 'Leo, comprendo, escribo'. La amenaza de la escritura realizada por sistemas de IA no es tal. Se hablará mucho y probablemente el artículo científico tal como ahora lo entendemos y estructuramos tenga los días contados y aparezcan otros formatos generados por IA según las necesidades de los lectores e investigadores, según sus preguntas de investigación y necesidades informativas.

Los autores serán citados por la contribución y publicación de su matriz de datos de la investigación de la que las aplicaciones IA extraerán y elaborarán los resultados aplicados a una pregunta de investigación concreta añadiendo información de otras matrices de información y comparando los resultados. Los incipientes sistemas de IA actuales ocultan sus fuentes de datos y esto no tardando no será así. Probablemente la escritura del informe de

investigación dejará de ser lo importante. Ruego al lector que me permita especular.

La plataforma editorial *Frontiers* ha incorporado la aplicación *Artificial Intelligence Review Assistant (AIRA)*, en su proceso editorial para la selección de revisores y en la revisión de artículos [4]. Ese es el camino.

La esencia de la investigación está en la pregunta, el objetivo, la hipótesis, el método y la generación de datos.

Leer y comprender va a ser la tarea humana fundamental, interpretar los resultados y aplicarlos.

Probablemente escribir dejará de serlo.

¿Qué refleja la información de los sistemas de IA sobre su papel en el proceso editorial o en la generación de informes de investigación?

Cuando planteo a ChatGPT mi pregunta sobre cómo influirá la inteligencia artificial en el proceso editorial de artículos científicos su respuesta es precisa y de gran ayuda para contextualizar:

La inteligencia artificial (IA) ya está siendo utilizada en varios aspectos del proceso editorial de los artículos científicos, y se espera que su uso se expanda en el futuro. Algunas formas en las que se podría incluir la IA en el proceso editorial de los artículos científicos incluyen:

Revisión de manuscritos: La IA puede ser utilizada para analizar los manuscritos enviados por los autores y hacer sugerencias sobre la calidad y el estilo de escritura. También puede ser utilizada para identificar posibles problemas de plagio y fraude.

Selección de revisores: La IA puede ser utilizada para identificar a los revisores más adecuados para un manuscrito en función de su historial de revisiones y su experiencia en el tema.

Edición de artículos: La IA puede ser utilizada para analizar el contenido del artículo y hacer sugerencias sobre la estructura, el estilo y la gramática.

Traducción de artículos: La IA puede ser utilizada para traducir artículos de un idioma a otro de forma rápida y precisa.

En resumen, se espera que la IA tenga un impacto significativo en el proceso editorial de los artículos científicos, y puede ayudar a mejorar la calidad y eficiencia del proceso en general. [5]

Sobre esta respuesta el lector / investigador / autor puede verificar, fundamentar, ampliar o reducir, profundizar y sintetizar la información [6].

Respecto a la segunda pregunta, tema de este editorial, sobre qué podemos esperar sobre la influencia de la IA en la lectura, comprensión y escritura su respuesta permite conocer la situación actual:

Se espera que la inteligencia artificial (IA) tenga un impacto significativo en las actividades de leer, comprender y escribir artículos científicos. En cuanto a la lectura, la IA puede ayudar a identificar de manera más eficiente la información relevante en grandes cantidades de literatura científica, lo que puede facilitar la búsqueda de información y mejorar la calidad de las revisiones sistemáticas y metaanálisis.

En cuanto a la comprensión, la IA puede ayudar a los científicos a identificar patrones en los datos y a realizar análisis de grandes cantidades de datos de manera más eficiente. También puede proporcionar herramientas para la visualización de datos, lo que puede mejorar la comprensión y la comunicación de los resultados.

En cuanto a la escritura, la IA puede ser útil en la redacción de secciones específicas de artículos científicos, como la discusión y las conclusiones, así como en la generación automática de resúmenes y la corrección gramatical. También puede ayudar en la detección de posibles errores y problemas en los artículos científicos antes de su publicación.

En resumen, se espera que la IA tenga un impacto significativo en todas las actividades relacionadas con la producción y comprensión de la literatura científica, lo que puede mejorar la calidad de los trabajos y hacer que el proceso sea más eficiente. [7]

Por tanto, la IA será una gran ayuda en todas las etapas de la investigación, en unas como herramientas auxiliares y otras sustituirán a la actividad humana. Me quedo con la referencia en la respuesta a las revisiones sistemáticas y metaanálisis, una de nuestras apuestas y la visualización y análisis de los datos (punto esencial de la investigación científica).

Las aplicaciones de IA abren nuevas oportunidades en la difusión científica y en este objetivo estará *Revista ORL*.

Como cada nuevo año, en nombre del Consejo Editorial de *Revista ORL* doy las gracias a quienes han contribuido con su esfuerzo en el proyecto, a los autores, revisores, lectores y editores y les invitamos a continuar con nosotros.

BIBLIOGRAFÍA

1. Pardal-Refoyo JL. La revista biomédica tiene una función importante como herramienta docente. *Rev ORL* [Internet]. 4 de abril de 2022 [citado 26 de febrero de 2023];13(1):e28505. Disponible en: <https://revistas.usal.es/cinco/index.php/2444-7986/article/view/28505>
2. Open Journal Systems (OJS). Open Journal Systems | OJS Hosting, Support, Customization
3. XXVIII Congreso de la Sociedad Otorrinolaringológica de Castilla y León, Cantabria y La Rioja Valladolid 2, 3 y 4 de junio de 2022. *Rev ORL*. 2022;13 (S2). Disponible en: <https://revistas.usal.es/cinco/index.php/2444-7986/issue/view/orl202213Supl2>
4. Artificial Intelligence to help meet global demand for high-quality, objective peer-review in publishing. 1 de julio de 2020. Disponible en: <https://blog.frontiersin.org/2020/07/01/artificial-intelligence-peer-review-assistant-aira/>
5. ChatGPT. Cómo crees que influirá la inteligencia artificial en el proceso editorial de artículos científicos. Recuperado de OpenAI plataforma. 26 de febrero de 2023. <https://chat.openai.com/>
6. Codina L. Cómo utilizar ChatGPT en el aula con perspectiva ética y pensamiento crítico: una proposición para docentes y educadores. 8 de febrero de 2023. Disponible en: <https://www.lluiscodina.com/chatgpt-educadores/>
7. ChatGPT. Cómo crees que la inteligencia artificial influirá en las actividades de leer, comprender y escribir artículos científicos. Recuperado de OpenAI plataforma. 26 de febrero de 2023. <https://chat.openai.com/>

SORDERA SÚBITA IDIOPÁTICA: FACTORES PRONÓSTICOS Y RESULTADOS DEL TRATAMIENTO DE RESCATE CON DEXAMETASONA INTRATIMPÁNICA

Idiopathic sudden sensorineural hearing loss: prognostic factors and outcomes of salvage treatment with intratympanic dexamethasone

José Ignacio BENITO-OREJAS ¹; Jesús Eduardo RAMÍREZ-SALAS ²; Eduardo Antonio MENA-DOMÍNGUEZ ³; Victoria DUQUE-HOLGUERA ¹; María Fe MUÑOZ-MORENO ⁴; Jaime SANTOS-PÉREZ ¹

¹SACYL. Hospital Clínico Universitario. Servicio de ORL y CCC. Valladolid. España.

²SACYL. Hospital Clínico Universitario. Servicio de ORL y CCC. León. España.

³Hospital de Santa Bárbara. Servicio de ORL y CCC, Puertollano, Ciudad Real. España.

⁴SACYL. Hospital Clínico Universitario. Servicio de Bioestadística de la Unidad de Apoyo a la Investigación. Valladolid. España.

Correspondencia: jbenitoorejasa@gmail.com

Fecha de recepción: 15 de julio de 2022

Fecha de aceptación: 20 de agosto de 2022

Fecha de publicación: 4 de septiembre de 2022

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

RESUMEN: Introducción y objetivos: La sordera súbita idiopática se define habitualmente, como una pérdida auditiva superior o igual a 30 dB HL, en 3 o más frecuencias consecutivas, con un tiempo de instauración inferior a 72 horas, de causa desconocida. Siendo actualmente motivo de discusión el efecto de la terapia esteroidea en este síndrome, evaluaremos la eficacia del corticoide intratimpánico (CIT) como tratamiento de rescate. Como objetivo secundario, estudiaremos la influencia de determinados factores considerados de riesgo o pronóstico. Pacientes y métodos: Se comparan los resultados de dos grupos de población con edad y pérdida auditiva similar. El primero, de 99 pacientes, recibió exclusivamente tratamiento

sistémico con corticoides. En el segundo de 70, con una sordera súbita idiopática refractaria al tratamiento general, instilamos corticoide intratimpánico. Comparamos las diferencias de umbral medio auditivo en el momento del diagnóstico y a los 3 meses, además del grado general de recuperación. Resultados: La aplicación intratimpánica de 3 dosis de dexametasona (8mg/ml) en la sordera súbita idiopática refractaria, no ha producido, en nuestra población, un cambio significativo respecto al tratamiento sistémico. Analizamos también la influencia de los factores pronósticos seleccionados. Discusión: Desconocemos la eficacia del tratamiento con corticoides en la sordera súbita idiopática. El tipo de lesión y las características del paciente podrían ser decisivos en el pronóstico final y en el resultado terapéutico. Conclusiones: El tratamiento de rescate con CIT, no ha aportado mejoría auditiva significativa en la población estudiada. Los factores con peor pronóstico son: la presencia de síntomas vestibulares, la hipoacusia de grado profundo, la caída audiométrica hacia tonos agudos, el inicio del tratamiento después de 2 semanas y fundamentalmente, la falta de mejoría de al menos 10 dB el 4º día de tratamiento.

PALABRAS CLAVE: sordera súbita idiopática refractaria; tratamiento de rescate; terapia con esteroides; promedio de tonos puros; intratimpánico; pronóstico.

SUMMARY: Introduction and objectives: Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss (ISSNHL) is commonly defined as greater than 30 dB of hearing loss in at least 3 audiometric frequencies occurring over 3 days or less, of unknown cause. Since the effect of steroid therapy in this syndrome is currently under discussion, we will evaluate the efficacy of intratympanic corticosteroid (ITC) as rescue treatment. As a secondary objective, we will study the influence of certain factors considered risk or prognostic. Patients and methods: The results of two population groups with similar age and hearing loss are compared. The first of 99 patients received exclusively systemic treatment with corticosteroids. In the second group of 70, with ISSNHL refractory to general treatment, we instilled intratympanic corticosteroids. We compared the differences in mean hearing threshold at diagnosis and at 3 months, as well as the general degree of recovery. Results: Intratympanic application of 3 doses of dexamethasone (8mg/ml) in refractory ISSNHL did not produce, in our population, a significant change with respect to systemic treatment. We also analyzed the influence of selected prognostic factors. Discussion: We do not know the efficacy of corticosteroid treatment in idiopathic sudden deafness. The type of lesion and patient characteristics could be decisive in the final prognosis and therapeutic outcome. Conclusions: Rescue treatment with ITC has not provided significant hearing improvement in the population studied. The factors with the worst prognosis are the presence of vestibular symptoms, profound hearing loss, high-frequency hearing loss in audiometry, the beginning of treatment after 2 weeks and fundamentally, the lack of improvement of at least 10 dB on the 4th day of treatment.

KEYWORDS: refractory sudden sensorineural hearing loss; salvage treatment; steroid therapy; pure-tone average; intratympanic; prognosis.

INTRODUCCIÓN

Desde 1944, la sordera súbita idiopática (SSI) se define como una pérdida auditiva unilateral neurosensorial (HNS) superior o igual a 30 dB HL, en 3 o más frecuencias consecutivas, con un tiempo de instauración inferior a 72 horas, de causa desconocida [1-3]. Se trata de un síndrome variable

en cuanto a etiología, sintomatología y pronóstico [4]. Su incidencia es desconocida, ante la dificultad de registrar los casos resueltos espontáneamente, sin control médico; aunque se estima entre 2 y 30/100.000 habitantes/año [1, 5].

La edad, la presencia de vértigo, el grado de hipoacusia, la configuración audiométrica y el tiempo transcurrido entre el inicio de la pérdida

auditiva y el tratamiento, con considerados factores pronóstico [3, 6-8].

El tratamiento de la SSI continúa siendo tema de discusión y aunque se utilizan diferentes estrategias, la más aceptada consiste en el uso de corticoides [9]. Se han descrito distintas modalidades de tratamiento corticoideo, pudiendo aplicarse de forma sistémica (TS), habitualmente oral (VO), aunque también intravenosa (IV); o localmente, mediante instilación intratimpánica (CIT) [1, 5]. El CIT ha sido utilizado fundamentalmente como tratamiento de rescate, aunque puede ser la única terapia o aplicarse de forma simultánea al TS [10]. Se recomienda el CIT cuando el paciente experimente una recuperación incompleta de su hipoacusia, lo que se denomina SSI refractaria (SSIR) [1, 11-12]. La lógica del tratamiento con CIT reside en aportar una elevada concentración de medicamento en la diana terapéutica, con exposición sistémica mínima y careciendo prácticamente de riesgos [13]. Sin olvidar los defectos de diseño y las diferencias metodológicas, la mayoría de los estudios indican que el CIT ejerce alguna actividad en la SSIR [1, 8, 10, 14-16].

Con este trabajo pretendemos analizar la respuesta auditiva del CIT como terapia de rescate en la SSIR y valorar la relevancia de algunos factores considerados de riesgo en la literatura.

MATERIAL Y MÉTODO

Este estudio se ha llevado a cabo en el Servicio de Otorrinolaringología de un Hospital Universitario de tercer nivel, perteneciente al Sistema Nacional de Salud y ha sido aprobado por el Comité Ético de Investigación.

Se comparan los resultados de 2 pautas de tratamiento aplicadas durante 10 años cada una. Por una parte, se realiza un estudio observacional retrospectivo de cohortes históricas, basado en la revisión de la historia clínica de los casos diagnosticados y tratados de SSI desde enero 2000 a diciembre 2009. Todos los pacientes recibieron un

TS e IV, con ingreso hospitalario y sin opción de CIT. Durante el segundo periodo (enero de 2010 a diciembre 2019), a los pacientes con SSI que no recuperaban la audición tras TS (VO o IV) les ofrecíamos la posibilidad de un tratamiento de rescate con CIT, evaluando de manera prospectiva a quienes lo aceptaron.

Criterios de inclusión. Adultos (≥ 18 años) que cumplen con la definición de SSI y realizan el seguimiento adecuado.

Criterios de exclusión. Aquellos casos con datos incompletos en la historia clínica o con antecedentes de ototoxicidad, radioterapia en cabeza, enfermedad otológica, traumatismo y otras causas de HNS reconocida.

Variables analizadas. Se tienen en cuenta las demográficas y clínicas, para evaluar posibles factores pronóstico y el resultado del estudio etiológico (analítica general, serologías, pruebas inmunológicas y resonancia magnética -RM-). Tras la exploración endoscópica (otomicroscopía), impedanciometría y acumetría, que descarta una hipoacusia de transmisión, se registran las audiometrías tonales en el momento del diagnóstico, al 4-5º día del tratamiento (coincidiendo con el alta hospitalaria de los ingresados) y a 1-3-6 meses y ≥ 1 año, siempre que sea posible. Se calcula el umbral medio de las frecuencias 0,5-1-2-4 y 8 kHz (PTA, *Pure Tone Average*). Si no se alcanza el umbral auditivo, por superar los límites del audiómetro, se fija el valor de 120 dB para esa frecuencia. Se estudia la diferencia global en dB HL (decibelios *hearing level*) entre el PTA inicial (PTAi, en el momento del diagnóstico) y a los 3 meses (PTA3m), y en 3 rangos de frecuencia: 250-500 Hz (tonos graves), 1-2 kHz (tonos medios) y 4-8 kHz (tonos agudos). Se anotan los días de demora hasta el inicio del tratamiento y si se produce una mejoría de al menos 10 dB HL, el 4-5º día de inicio del TS.

Para la introducción de los datos se creó una base específica en Microsoft Access, respetando la normativa de confidencialidad.

En el primer periodo, todos los pacientes (N=60) fueron tratados con metilprednisolona IV (1 mg/kg/día) en pauta descendente, durante 4-5 días, donde coincidiendo con el alta hospitalaria se continúa VO hasta 14 días. Este tratamiento se complementaba durante el ingreso con pentoxifilina IV (3 ampollas de 600 mg cada una/24 horas), siguiendo VO (400 mg cada 8 horas) 1 mes; carbógeno (O₂: 90-95% y CO₂: 10-15%) a 6 litros/min, 30 min cada 2 horas, 48-72 horas, respetando el descanso nocturno y 1 litro/24 horas de un expansor del plasma (Rheomacrodex o Ringer lactato).

En el 2º periodo, el TS (N=102) podía ser IV (misma pauta que en el primero, incluyendo el tratamiento vasoactivo) (N=78) o VO (N=24) con prednisona 1 mg/kg/día o deflazacort a dosis correspondiente, en pauta descendente durante 14 días. Si la recuperación era incompleta al 4-5º día de tratamiento, se ofrecía la posibilidad de terapia intratimpánica, con 3 dosis, 1 semanal, de dexametasona 8mg/ml. La inyección de CIT, realizada generalmente por el mismo especialista, se lleva a cabo colocando al paciente en decúbito supino con la cabeza elevada 30º, anestesiando tópicamente, mediante un algodón impregnado en fenol al 88% en los dos puntos de inyección. Tras la anestesia, que se verifica por el aspecto blanco lechoso del tímpano, practicamos con microscopio dos orificios con aguja de punción lumbar 25 G, uno en el cuadrante anterosuperior del tímpano, que permite la salida del aire durante la instilación y otro en cuadrantes posteriores por donde se introduce, con una jeringa de 2 ml, el mayor volumen posible de medicamento, a temperatura corporal, para evitar mareo. Mantenemos durante unos 20 minutos la cabeza del paciente en la posición descrita, ladeada ligeramente hacia el lado sano, pidiéndole evitar la deglución y dándole unos pañuelos para expulsar la saliva.

Finalmente, con el registro de los datos, se obtiene la diferencia entre el PTA_i y el PTA_{3m} y se aplican los criterios de Siegel modificados, determinando si la recuperación es completa (diferencia

< 10 dB con el oído contralateral o PTA 3m < 25 dB, si el contralateral es normal), parcial (mejoría de PTA 3m ≥ 10 dB) o nula (mejoría de PTA 3m < 10 dB). Analizamos la ganancia auditiva (PTA_i – PTA_{3m}), el grado de recuperación en función del tratamiento administrado (TS exclusivo o bien TS+IT) y la influencia de los factores pronóstico que hemos considerado. De esta manera obtenemos un valor numérico y otro en categorías para el análisis estadístico.

Análisis estadístico. Las variables cuantitativas se presentan con la media y la desviación típica y las cualitativas según su distribución de frecuencias. Se ha utilizado la prueba de Kolmogorov Smirnov para la comprobación de la normalidad. Mediante la prueba Chi-cuadrado de Pearson, se analiza la asociación de las variables cualitativas. En el caso de que el número de celdas con valores esperados menores de 5 sea mayor de un 20%, aplicamos el test exacto de Fisher o el test Razón de verosimilitud para variables con más de dos categorías. Para comparar los valores cuantitativos aplicamos la prueba T de Student para muestras independientes, ANOVA de un factor o alternativas no paramétricas, la prueba U de Mann Whitney y Kruskal Wallis. Los datos han sido analizados con el programa estadístico IBM SPSS Statistics versión 24.0 para Windows. Aquellos valores de p<0,05 fueron considerados estadísticamente significativos.

RESULTADOS

1. Población. Durante el primer periodo (2000-2009) se analizaron retrospectivamente 109 historias de SSI, excluyendo a 49 (45%) por diferentes motivos (criterios de exclusión, evolución a *hidrops* endolinfático), formando parte de este grupo 60 pacientes que recibieron TS (IV, con ingreso hospitalario). El 2º periodo (2010-2019) comprende 130 pacientes, de los que 21 (16%) fueron excluidos y de los 109 restantes, 39 recibieron TS exclusivamente (32-IV, 7-VO) y a 70 se les administró además CIT; excluyendo 1

paciente cuyo tratamiento con CIT fue tardío y a 6, a quienes se les aplicó tratamiento sistémico VO seguido de IV, antes del CIT (N=102: 39 TS exclusivo y 63 TS + CIT) (Tabla 1, Anexo 1).

Comparando la diferencia de PTAi - PTA3m de la población de 60 pacientes del primer periodo, con la de los 39 del segundo con TS exclusivo, no existen diferencias estadísticamente significativas, por lo que consideraremos conjuntamente a estos 99 pacientes representativos del grupo de TS (Tablas 1 y 2, Anexos 1 y 2).

Tal y como se aprecia en la Tabla 1 (Anexo 1) y en la Figura 1, la edad media, el PTAi y la distribución de pacientes por grados de hipoacusia fue similar en el grupo del TS y en el que además recibió CIT (TS + CIT).

En la Tabla 1 (Anexo 1) se muestran las características generales de la población de estudio y los

resultados obtenidos, con su significación estadística, en función de las variables analizadas, expresadas por la diferencia PTAi - PTA3m (resultados cuantitativos). En la Tabla 2 (Anexo 2), con las mismas variables, figura el grado de recuperación de Siegel modificado, con su significación estadística (tabla de resultados cualitativa).

2. Diagnóstico etiológico. De los 169 pacientes, disponemos de 156 pruebas de RM, de las que 15 (9,6%) fueron anómalas, pero sólo en 2, la alteración de la RM era la causa directa de la SSI (schwannoma VIII par: 1,3%).

Los estudios de laboratorio serológicos, inmunológicos y generales que solicitamos, no ofrecieron significado pronóstico. Detectamos un 27% de alteraciones inmunológicas, cuyos pacientes no mostraron diferencias significativas en la ganancia auditiva (Tabla 1, Anexo 1).

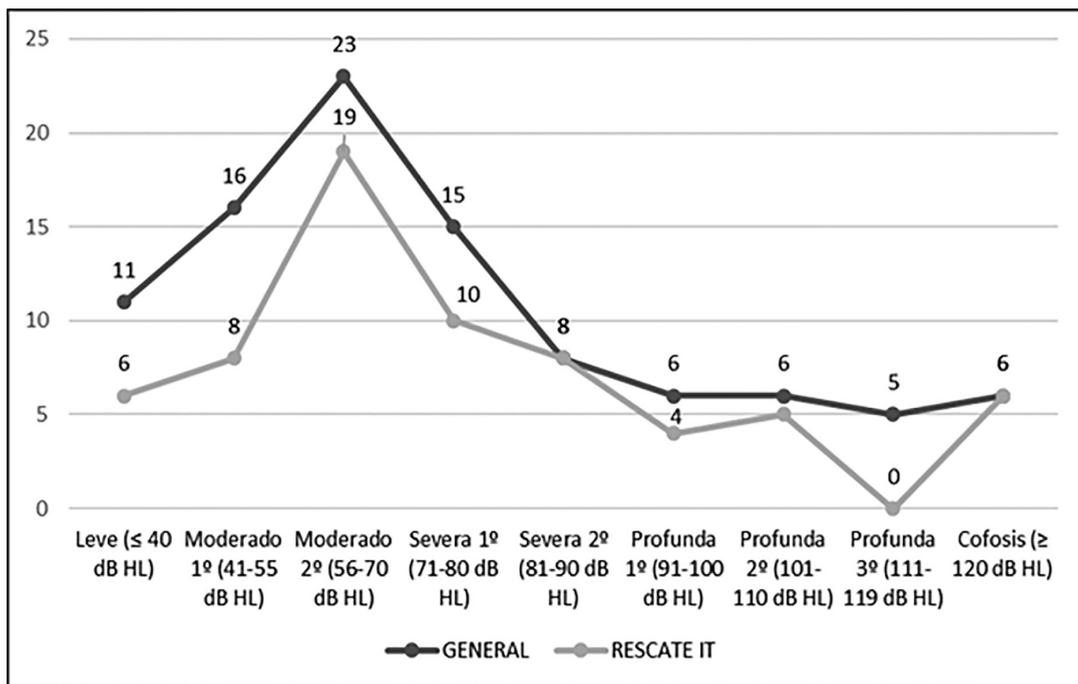


Figura 1. Distribución del número de pacientes en función del grado de hipoacusia, según que el tratamiento haya sido exclusivamente sistémico: trazado negro (N: 96) o con rescate IT: trazado gris (N: 66).

3. Factores pronóstico/de riesgo. Hemos considerado como tales, la edad, la configuración y el grado de hipoacusia, la presencia de antecedentes vasculares (HTA, diabetes, hiperlipemia, cardiopatía, tratamiento anticoagulante y tabaquismo), la pérdida auditiva contralateral previa y la aparición de vértigo o acúfenos en el momento del diagnóstico. La distribución de estos factores en relación con la población se muestra en las Tablas 1 y 2 (Anexos 1 y 2), donde comprobamos que, la presencia de síntomas vestibulares, la HNS con caída hacia tonos agudos y la HNS profunda, ensombrecen significativamente el pronóstico. Si el tiempo transcurrido entre el inicio de la pérdida auditiva y el tratamiento, supera los 14 días, el pronóstico decae significativamente (Tabla 3).

El factor pronóstico con significación estadística más importante de los analizados es la mejoría ≥ 10 dB HL del PTA el 4-5º día de tratamiento (que se produce en el 33% de la población) (Tablas 1 y 2, Anexos 1 y 2).

4. Resultados del tratamiento. La diferencia de PTA_i - PTA_{3m}, es significativamente mayor ($p < 0,002$) en el grupo de TS que en los pacientes que recibieron además CIT (Tabla 1, Anexo 1). En la Tabla 2 (Anexo 2) vemos que el grado de recuperación global (completa + parcial) también es significativamente mejor en los que recibieron TS exclusivo (64% frente a 41%).

Si en el grupo de pacientes que no llegaron a mejorar 10 dB el 4º día de tratamiento, comparamos el que recibió TS con el que además se inyectó CIT, veremos que las diferencias tampoco son significativas ($p > 0,187$) (Tabla 1, Anexo 1). Por tanto, en ningún de estos supuestos, el tratamiento con CIT resultó beneficioso.

Un 4% de los pacientes que recibieron CIT sufrió una perforación timpánica permanente.

En la Tabla 4 vemos la diferencia de PTA, según se aplique un TS o un TS + CIT, en función del grado de hipoacusia, comprobando que la máxima recuperación observada en los pacientes con TS + CIT se produce entre 71 y 100 dB. En la Figura 2

mostramos el comportamiento que experimenta la recuperación auditiva en cada grupo de tratamiento. La recuperación global (completa y parcial) con el TS es mayor cuanto menor sea la pérdida auditiva. Contradictoriamente, en los pacientes que además reciben CIT, el porcentaje de recuperación se incrementa a medida que la hipoacusia es mayor, hasta la hipoacusia profunda de 1º grado.

DISCUSIÓN

1. Población. La edad media de la población estudiada con SSI está comprendida en el rango generalmente aceptado (45-55 años) [1], con una distribución por franjas, similar a la pirámide poblacional de nuestra provincia (18 a 85 años) [17-18]. Predomina discretamente en hombres (1,26/1) [19-20] y en el oído derecho, aunque no suelen considerarse estas pequeñas diferencias [3, 5]. La hipoacusia moderada fue la más frecuente (41%), pero esta proporción varía en otros estudios [11].

2. Diagnóstico etiológico de la SSI. Para descartar patología retrococlear se debe solicitar una RM. La tasa de anomalías referida en la literatura varía del 4,4 al 13,7% [21]. La mayoría son hallazgos incidentales sin importancia. Un 10-12% de schwannomas del VIII par, se manifiestan con SSI, pero la prevalencia de tumores del ángulo pontocerebeloso en la SSI es del 2,7% al 10,2% [21-22].

Sin embargo, las guías internacionales no recomiendan estudios de laboratorio de rutina, sin tener en cuenta las características específicas del paciente, sus enfermedades concomitantes, síntomas adicionales o factores de riesgo [1, 6].

3. Variables influyentes en el pronóstico de la SSI [4, 18, 23-25]:

- La edad y los antecedentes vasculares son factores que suelen ir asociados y considerados de mal pronóstico [3, 26]. En nuestros resultados su presencia no influye en la ganancia auditiva, pero dado que el PTA_i es mayor

SORDERA SÚBITA IDIOPÁTICA: FACTORES PRONÓSTICOS Y RESULTADOS DEL TRATAMIENTO DE RESCATE CON DEXAMETASONA INTRATIMPÁNICA
 BENITO-OREJAS JI, RAMÍREZ-SALAS JE, MENA-DOMÍNGUEZ EA ET AL.

Tabla 3. Diferencias de PTA en función del tiempo transcurrido hasta el inicio del tratamiento. Dadas las diferencias de PTA, agrupamos los días transcurridos en 3 grupos: 1 a 4 días, 5 a 14 días y > 14 días, observándose mediante la prueba ANOVA intergrupos que hay una diferencia significativa en aplicar el tratamiento antes o después de 14 días.

| Inicio del tratamiento N: 128 | | PTA inicial | PTA 3 meses | Diferencia PTA | Medias |
|-------------------------------|--------------|-------------|-------------|----------------|--------|
| 1 día | 41/128 (32%) | 69,41 | 49,36 | 20,05 | 21,28 |
| 2 días | 13/128 (10%) | 73,38 | 49,07 | 24,31 | |
| 3-4 días | 19/128 (15%) | 74,94 | 53,47 | 21,47 | |
| 5-7 días | 27/128 (21%) | 76,22 | 59,29 | 16,93 | 15 |
| 8-14 días | 16/128 (13%) | 81,12 | 69,37 | 11,75 | |
| 15-21 días | 3/128 (2%) | 74,66 | 73,33 | 1,33 | 1,5 |
| 22-30 días | 4/128 (3%) | 66 | 63 | 3 | |
| > 1 mes | 5/128 (4%) | 55,8 | 55,4 | 0,4 | |

| Tiempo Comparación | | Diferencia de medias | Sig. | Intervalo de confianza al 95% | |
|--------------------|------------|----------------------|-------|-------------------------------|-----------------|
| | | | | Límite inferior | Límite superior |
| 1-4 días | 5-14 días | 6,178 | 0,093 | -1,05 | 13,41 |
| | >= 15 días | 19,678 | 0,001 | 7,96 | 31,40 |
| 5-14 días | >= 15 días | 13,500 | 0,031 | 1,22 | 25,78 |

Tabla 4. Distribución de pacientes con SSI y valores de PTA inicial (PTA-I), PTA a los 3 meses y diferencias de PTA, según se haya aplicado el tratamiento vía sistémica exclusivamente o con rescate CIT añadido, en función de los diferentes grados de hipoacusia. Observamos que la máxima recuperación observada en los pacientes con rescate CIT se produce entre 71 y 100 dB.

| GRADO HIPOACUSIA | TTO. SISTÉMICO (N: 96) | | | | TTO. SISTÉMICO + IT (N: 66) | | | |
|-----------------------------|------------------------|--------|--------|------------|-----------------------------|-------|--------|------------|
| | N | PTA -I | PTA-3m | Diferencia | N | PTA-I | PTA-3m | Diferencia |
| Leve (\leq 40 dB HL) | 11 | 29,45 | 16,72 | 12,7 | 6 | 29,5 | 30,85 | 0 |
| Moderado 1º (41-55 dB HL) | 16 | 48,18 | 35,26 | 12,9 | 8 | 50,5 | 48,87 | 1,6 |
| Moderado 2º (56-70 dB HL) | 23 | 63,08 | 35,58 | 27,5 | 19 | 62,68 | 58,57 | 4,1 |
| Severa 1º (71-80 dB HL) | 15 | 76,53 | 50,53 | 26 | 10 | 75,6 | 52 | 23,6 |
| Severa 2º (81-90 dB HL) | 8 | 84,37 | 56 | 28,4 | 8 | 86,5 | 60,62 | 25,8 |
| Profunda 1º (91-100 dB HL) | 6 | 97,1 | 87,6 | 9,5 | 4 | 95,25 | 59,25 | 36 |
| Profunda 2º (101-110 dB HL) | 6 | 107,5 | 83,66 | 23,8 | 5 | 106,6 | 99 | 7,6 |
| Profunda 3º (111-119 dB HL) | 5 | 115 | 104,6 | 10,4 | 0 | | | |
| Cofosis (\geq 120 dB HL) | 6 | 120 | 116,66 | 3,3 | 6 | 120 | 113 | 7 |

en estos pacientes, la audición residual deja en muchos casos, de ser funcional.

- La presencia de hipoacusia contralateral > 20 dB no parece influir significativamente en el porcentaje de recuperación.
- Los síntomas vestibulares (25%), son referidos con mayor frecuencia en la literatura (30-60%)

y como en nuestros pacientes, asocian un peor pronóstico en la recuperación auditiva, siendo también casos más severos [7, 11, 18].

- Mientras que para unos autores los acúfenos siempre están presentes [1], la frecuencia en nuestra población es del 59%, similar a la referida por otros [11, 14]. Más frecuentes con

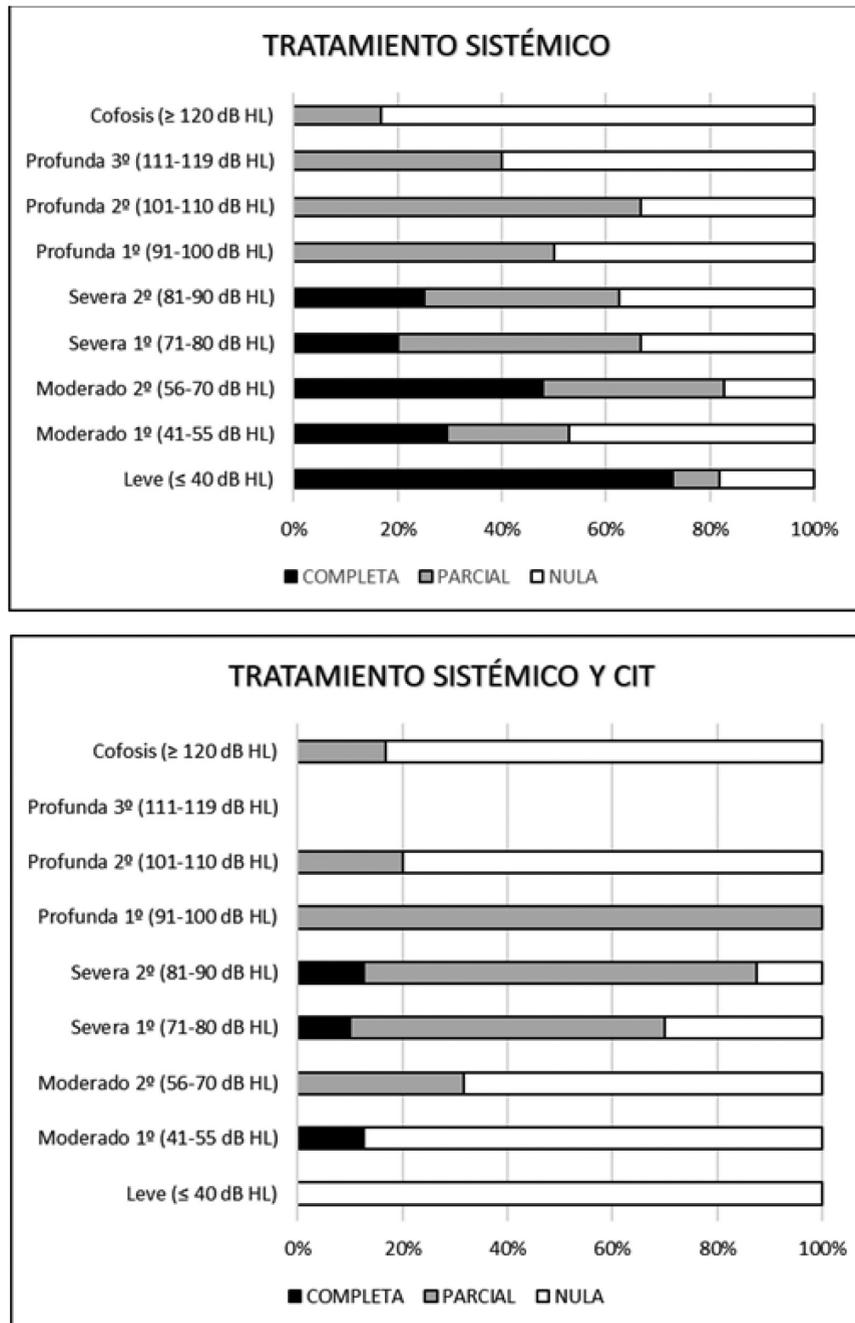


Figura 2. Porcentaje relativo de recuperación (completa: negro, parcial: gris o nula: blanco), en función del tipo de tratamiento (sistémico exclusivo: gráfico superior o con rescate intratimpánico (CIT): gráfico inferior) y del grado de hipoacusia.

menor edad, Dallan et al. (2010) [13] consideran, que podrían representar un marcador de actividad de las células dañadas, correlacionándose con un mejor pronóstico.

- La recuperación también depende del grado de hipoacusia inicial y del tiempo transcurrido hasta el inicio del tratamiento [4, 13, 27-28]. De acuerdo con la mayoría de los autores, la HNS profunda (> 100 dB), tiene muy mal pronóstico [3, 29]. Y aunque la recuperación completa disminuye a medida que crece el grado de hipoacusia (Figura 2), por causas que desconocemos, en la hipoacusia de grado severo, el porcentaje nulo de recuperación es inferior al resto y la ganancia a los 3 meses, significativamente mayor (Tablas 1 y 2, Anexos 1 y 2) [18, 30].

La efectividad del tratamiento decae si se aplica después de 2 semanas [1, 7, 12, 25, 31-32], aconsejándose iniciarlo lo más precozmente posible [3, 6, 31-32] (Tabla 3). Pero desconocemos si el problema reside en la propia persistencia de la HNS durante tanto tiempo, con un mal pronóstico implícito por este motivo, o en el retraso terapéutico.

- De acuerdo con el Consenso Internacional de 2017 [2], el factor pronóstico que para nosotros muestra una mayor significación estadística es la mejoría de 10 dB al 4-5º día de tratamiento y dada su importancia, es posible que el tipo y grado de lesión inicial, en un paciente concreto (con sus factores de riesgo), sea determinante en su recuperación final [3].

4. Resultados del tratamiento. Presentamos los resultados de un TS con corticoides, administrado VO o IV, seguido de terapia de rescate con CIT en aquellos casos con mejoría incompleta o nula, durante la primera semana del inicio de los síntomas (SSIR). En nuestra población, tan sólo un 30% de pacientes experimenta una mejoría completa (Tabla 2, Anexo 2).

Hemos analizado a los 3 meses el PTA postratamiento, porque en el 98,3% de nuestra población se ha estabilizado la pérdida auditiva en este tiempo [1, 3]. El sentido de realizar un seguimiento audiométrico posterior, es para valorar un tratamiento rehabilitador (adaptación protésica o terapia del acúfeno) y para poner al descubierto una posible causa. Los pacientes que estudiamos hasta los 6 meses (N: 87) o hasta el año (N: 35) no sufrieron cambios significativos en su nivel auditivo. La evaluación durante años nos permitió descubrir una causa subyacente (sobre todo de hidrops endolinfático) en más de un tercio de nuestra población, que tuvimos que desechar del estudio [22].

En el análisis de los resultados, las dificultades residen en la historia natural de la SSI, en el uso de diferentes criterios de éxito terapéutico y finalmente en el desconocimiento de la causa, que como hemos dicho, probablemente sea determinante en el pronóstico [13, 16]. No hay una definición de fracaso terapéutico, pero una mejoría del PTA no es el único parámetro para discriminar el éxito de cara al paciente [25], para el que quizá, lo más importante fuera considerar la restauración de una audición funcional [1, 13]. En nuestro trabajo hemos evaluado el grado de recuperación, siguiendo la guía de la Sociedad ORL española [5], que aplica los criterios de Siegel modificados [33].

CIT como tratamiento de rescate en la SSIR. Aunque no existe acuerdo en el tipo de corticoide, concentración, número de inyecciones, forma y frecuencia de aplicación [6, 12], el Consenso Español del año 2019 [5] al igual que otros [1, 6], aconseja una inyección transtimpánica semanal de dexametasona 8mg/ml, durante 3 semanas. El riesgo principal es la perforación timpánica [34].

Si bien la literatura parece indicar que el rescate con CIT ejerce alguna actividad en la SSIR [1, 8, 10-12, 14-16, 35], nuestros resultados, coincidentes con los de otros, no lo confirman [19, 25]. La dexametasona IT en la pauta establecida, se muestra ineficaz, tanto se produzca o no, una mejoría de 10 dB a los 4-5 días del TS. Es posible que la eficacia

dependa de la concentración, mejorando los resultados con dosis de dexametasona de 24 mg/ml [36].

Debido al gradiente de distribución del corticoide entre la base y el ápex coclear, algunos autores aconsejan que, en caso de aplicar CIT, la evaluación se realice por cambios de frecuencia, esperando que se obtengan mejores resultados en los tonos agudos [18, 37]. Pero al igual que otros, en nuestro estudio, las frecuencias agudas son las que muestran el peor pronóstico de recuperación, sin que la evaluación frecuencial nos haya aportado otras ventajas (Tabla 1, Anexo 1) [29].

Dentro del TS + CIT hemos utilizado la VO y la IV. Aunque sólo hemos estudiado a 17 pacientes con tratamiento VO + CIT, los resultados indican que el tratamiento IV + CIT resulta más beneficioso (Tabla 1, Anexo 1). El primer trabajo sobre la efectividad del corticoide VO en la SSI es el de Wilson et al, en 1980 [38], que no ha sido replicado por otros [9, 39], por lo que desconocemos en qué grado supera la resolución espontánea, que en la literatura se cifra entre un 32% y un 65% [6, 8, 35]. La diferente respuesta del corticoide VO o IV, pudiera deberse a otros motivos distintos del relacionado con su efectividad intrínseca. En el protocolo del tratamiento IV que aplicamos en el hospital, añadimos pentoxifilina, carbógeno y expansores del plasma; que podrían aportar un efecto complementario [19]. Pero también pudiera ser, que mientras hemos podido evaluar a todos los pacientes ingresados con tratamiento IV; algunos de los que recibieron corticoide VO en régimen ambulatorio, especialmente si mejoraron completamente, no volvieran a la revisión (no disponemos de datos), obteniéndose por tal motivo, los peores resultados de esta terapia. Finalmente hay quien piensa que la mejoría auditiva se debe, en parte, al ingreso hospitalario, al evitar el estrés social, reduciendo la ansiedad [40].

Los estudios que analizan el efecto del corticoide en la SSI muestran una eficacia variable del 0 al 100%, evidenciando la inconsistencia de los resultados [16]. Crane et al. (2015) [16], concluyen

tras su amplio metanálisis, que la vía de administración del corticoide no influye en el resultado, porque los esteroides no parecen tener un efecto en la SSI y la aparente efectividad del CIT como terapia de rescate viene avalada por estudios de escasa calidad. Si desconocemos la eficacia del corticoide en la SSI, sobran el resto de las consideraciones y debiéramos replantearnos su efecto en relación con el placebo [16].

Las limitaciones de este estudio vienen determinadas por su carácter observacional y por el tamaño de la muestra, diferente en cada grupo de población. Al tratarse de un único centro, puede facilitarse el sesgo, pero, sin embargo, nos ha permitido un buen control del seguimiento. La escasa incidencia de la SSI ha condicionado el número de casos y el de años empleados. Aun cuando asumimos que la eficacia del corticoide VO y vía IV son similares, pudiera haber un sesgo de selección en favor de la vía IV en los casos más graves.

CONCLUSIONES

En la SSI refractaria, el tratamiento de rescate con CIT (dexametasona 8 mg/ml, 3 inyecciones, 1 a la semana), iniciado la primera semana de instauración del TS, no ha aportado mejoría auditiva significativa en la población estudiada.

De los factores de riesgo analizados, los que tienen en nuestra población peor pronóstico son: la presencia de síntomas vestibulares, la hipoacusia de grado profundo, la caída audiométrica hacia tonos agudos, el inicio del tratamiento después de 2 semanas y fundamentalmente, la falta de mejoría de al menos 10 dB el 4º día de tratamiento.

AGRADECIMIENTOS

Sin la colaboración y entendimiento de todos los miembros del Servicio de ORL, médicos, enfermeras y auxiliares, no hubiera sido posible el registro y seguimiento de estos pacientes durante tanto tiempo. Gracias por su comprensión y ayuda.

Nuestro agradecimiento al Dr. Enrique Coscarón por sus comentarios en la elaboración de este manuscrito.

BIBLIOGRAFÍA

1. Chandrasekhar SS, Tsai Do BS, Schwartz SR, Bontempo LJ, Faucett EA, Finestone SA, et al. Clinical Practice Guideline: Sudden Hearing Loss (Update). *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2019;161(1_suppl):S1-S45. doi: 10.1177/0194599819859885. PMID: 31369359.
2. Marx M, Younes E, Chandrasekhar SS, Ito J, Plontke S, O'Leary S, et al. International consensus (ICON) on treatment of sudden sensorineural hearing loss. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2018;135(1S):S23-8.
3. Singh A, Irugu DVK. Sudden sensorineural hearing loss—A contemporary review of management issues. *Journal of Otology.* 2020;15(2), 67-73.
4. Perez Ferreira Neto A, da Costa Monsanto R, Dore Saint Jean L, Sonzzini Ribeiro de Souza L, de Oliveira Penido N. Clinical Profile of Patients With Unilateral Sudden Sensorineural Hearing Loss: Correlation With Hearing Prognosis. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2021;9. doi: 10.1177/0194599820986571. PMID: 33557702.
5. Herrera M, García Berrocal JR, García Arumí A, Lavilla MJ, Plaza G; Grupo de Trabajo de la Comisión de Audiología de la SEORL. Actualización del consenso sobre el diagnóstico y tratamiento de la sordera súbita idiopática. 2019;70(5):290-300. doi: 10.1016/j.otorri.2018.04.010. PMID: 30093087.
6. Stachler RJ, Chandrasekhar SS, Archer SM, Rosenfeld RM, Schwartz SR, Barrs DM, et al. American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery. Clinical practice guideline: sudden hearing loss. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;146(3 Suppl):S1-35. doi: 10.1177/0194599812436449. PMID: 22383545.
7. Fetterman BL, Saunders JE, Luxford WM. Prognosis and treatment of sudden sensorineural hearing loss. *Am J Otol.* 1996;17(4):529-36. PMID: 8841697.
8. Haynes DS, O'Malley M, Cohen S, Watford K, Labadie RF. Intratympanic dexamethasone for sudden sensorineural hearing loss after failure of systemic therapy. *Laryngoscope.* 2007;117(1):3-15. doi: 10.1097/01.mlg.0000245058.11866.15. PMID: 17202923.
9. Conlin AE, Parnes LS. Treatment of sudden sensorineural hearing loss: II. A Meta-analysis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2007;133(6):582-6. doi: 10.1001/archotol.133.6.582. PMID: 17576909.
10. Plaza G. Sordera súbita. Diagnóstico y tratamiento. 1ª ed. Madrid: ERGON; 2018. 367p.
11. Ahmadzai N, Kilty S, Cheng W, Esmaeilisaraji L, Wolfe D, Bonaparte JP, et al. A systematic review and network meta-analysis of existing pharmacologic therapies in patients with idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *PLoS One.* 2019;14(9):e0221713. doi: 10.1371/journal.pone.0221713. PMID: 31498809.
12. Liu Y, Chen Q, Xu Y. Research progress in refractory sudden hearing loss: steroid therapy. *J Int Med Res.* 2020;48(1). doi: 10.1177/0300060519889426. PMID: 31939327.
13. Dallan I, De Vito A, Fattori B, Casani AP, Panicucci E, Berrettini S, et al. Intratympanic methylprednisolone in refractory sudden hearing loss: a 27-patient case series with univariate and multivariate analysis. *Otol Neurotol.* 2010;31(1):25-30. doi: 10.1097/MAO.0b013e3181c34f18. PMID: 19940792.
14. Plaza G, Herráiz C. Intratympanic steroids for treatment of sudden hearing loss after failure of intravenous therapy. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2007;137(1):74-8. doi: 10.1016/j.otohns.2007.01.022. PMID: 17599569.
15. Ng JH, Ho RC, Cheong CS, Ng A, Yuen HW, Ngo RY. Intratympanic steroids as a salvage treatment for sudden sensorineural hearing loss? A meta-analysis. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2015;272(10):2777-82. doi: 10.1007/s00405-014-3288-8. PMID: 25217083.
16. Crane RA, Camilon M, Nguyen S, Meyer TA. Steroids for treatment of sudden senso-

- rineural hearing loss: a meta-analysis of randomized controlled trials. *Laryngoscope*. 2015;125(1):209-17. doi: 10.1002/lary.24834. PMID: 25045896.
17. Padrón Municipal de Habitantes (INE) del municipio y provincia de Valladolid. Datos 2020. <https://www.foro-ciudad.com/valladolid/valladolid/habitantes.html> Revisado el 12-9-21.
 18. Covelli E, Altabaa K, Verillaud B, Camous D, Hautefort C, Barbara M, et al. Intratympanic steroids as a salvage therapy for severe to profound idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *Acta Otolaryngol*. 2018;138(11):966-71. doi: 10.1080/00016489.2018.1497805. PMID: 30380957.
 19. Plontke SK. Diagnostics and therapy of sudden hearing loss. *GMS Curr Top Otorhinolaryngol Head Neck Surg*. 2018;16:Doc05. doi: 10.3205/cto000144. PMID: 29503670.
 20. Xie Y, Orabi NA, Zwolan TA, Basura GJ. Outcomes of unilateral idiopathic sudden sensorineural hearing loss: Two decades of experience. *Laryngoscope Investig Otolaryngol*. 2019;4(6):693-702. doi: 10.1002/liv.2.331. PMID: 31890890.
 21. Nosrati-Zarenou R, Hansson M, Hultcrantz E. Assessment of diagnostic approaches to idiopathic sudden sensorineural hearing loss and their influence on treatment and outcome. *Acta Otolaryngol*. 2010;130(3):384-91. doi: 10.1080/00016480903161541. PMID: 19688620.
 22. Penido N de O, Ramos HV, Barros FA, Cruz OL, Toledo RN. Clinical, etiological and progression factors of hearing in sudden deafness. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2005;71(5):633-8. doi: 10.1016/s1808-8694(15)31268-4. PMID: 16612525.
 23. Lionello M, Staffieri C, Breda S, Turato C, Giacomelli L, Magnavita P, et al. Uni- and multivariate models for investigating potential prognostic factors in idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2015;272(8):1899-906. doi: 10.1007/s00405-014-2992-8. PMID: 24664295.
 24. Enache R, Sarafoleanu C. Prognostic factors in sudden hearing loss. *J Med Life*. 2008;1(3):343-7. PMID: 20108511.
 25. Cheng YF, Chu YC, Tu TY, Shiao AS, Wu SL, Liao WH. Modified Siegel's criteria for sudden sensorineural hearing loss: Reporting recovery outcomes with matched pretreatment hearing grades. *J Chin Med Assoc*. 2018;81(11):1008-12. doi: 10.1016/j.jcma.2018.03.012. PMID: 29929833.
 26. Lam M, Bao Y, Hua GB, Sommer DD. Sudden Sensorineural Hearing Loss and Metabolic Syndrome: A Systematic Review and Meta-analysis. *Otol Neurotol*. 2021;42(9):1308-13. doi: 10.1097/MAO.0000000000003302. PMID: 34325457.
 27. Sciancalepore PI, de Robertis V, Sardone R, Quaranta N. Sudden sensorineural hearing loss: What factors influence the response to therapy? *Audiol Res*. 2020;10(1):234. doi: 10.4081/audiolres.2020.234. PMID: 32944207.
 28. Sajid T, Ali SM, Shah MI, Hussain A, Zaman A, Qamar Naqvi SR, et al. Oral Corticosteroid Therapy For Sudden Sensorineural Hearing Loss And Factors Affecting Prognosis. *J Ayub Med Coll Abbottabad*. 2021;33(2):279-82. PMID: 34137545.
 29. Salvador P, Moreira da Silva F, Fonseca R. Idiopathic sudden sensorineural hearing loss: Effectiveness of salvage treatment with low-dose intratympanic dexamethasone. *J Otol*. 2021;16(1):6-11. doi: 10.1016/j.joto.2020.06.002. PMID: 33505443.
 30. Lee JD, Park MK, Lee CK, Park KH, Lee BD. Intratympanic steroids in severe to profound sudden sensorineural hearing loss as salvage treatment. *Clin Exp Otorhinolaryngol*. 2010;3(3):122-5. doi: 10.3342/ceo.2010.3.3.122. PMID: 20978628.
 31. Battaglia A, Lualhati A, Lin H, Burchette R, Cueva R. A prospective, multi-centered study of the treatment of idiopathic sudden sensorineural hearing loss with combination therapy versus high-dose prednisone alone: a 139 patient follow-up. *Otol Neurotol*. 2014;35(6):1091-8. doi: 10.1097/MAO.0000000000000450. PMID: 24892363.
 32. Rauch SD. Clinical practice. Idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *N Engl*

- J Med. 2008;359(8):833-40. doi: 10.1056/NEJMcp0802129. PMID: 18716300.
33. Siegel LG. The treatment of idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *Otolaryngol Clin.* 1975;8:467e73.
34. Kim YH, Lee DY, Lee DH, Oh S. Tympanic Membrane Perforation After Intratympanic Steroid Injection: A Systematic Review and Meta-analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2021;1945998211012300. doi: 10.1177/01945998211012300. PMID: 34058895.
35. El Sabbagh NG, Sewitch MJ, Bezdjian A, Daniel SJ. Intratympanic dexamethasone in sudden sensorineural hearing loss: A systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope.* 2017;127(8):1897-1908. doi: 10.1002/lary.26394. PMID: 27861924.
36. Alexander TH, Harris JP, Nguyen QT, Vorasubin N. Dose Effect of Intratympanic Dexamethasone for Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss: 24 mg/ml is superior to 10 mg/ml. *Otol Neurotol.* 2015;36(8):1321- 1327. doi:10.1097/MAO.0000000000000834.
37. Chu CH, Chiou SR, Wang MC, Shiao AS, Tu TY, Lin LY, et al. The Efficacy of Concurrent or Sequential Intravenous and Intratympanic Steroid for Idiopathic Sudden Sensorineural Hearing Loss. *Audiol Neurootol.* 2018;23(5):277-84. doi: 10.1159/000494966. PMID: 30537751.
38. Wilson WR, Byl FM, Laird N. The efficacy of steroids in the treatment of idiopathic sudden hearing loss. A double-blind clinical study. *Arch Otolaryngol.* 1980;106(12):772-6. doi: 10.1001/archotol.1980.00790360050013. PMID: 7002129.
39. Wei BP, Stathopoulos D, O'Leary S. Steroids for idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *Cochrane Database Syst Rev.* 2013;2013(7):CD003998. doi: 10.1002/14651858.CD003998.pub3. PMID: 23818120.
40. Kim MJ, Heo KW, Jeon PH, Lee JJ, Lee JH. Necessity of admission to improve the hearing-recovery rate in idiopathic sudden sensorineural hearing loss. *Acta Otolaryngol.* 2018;138(4):357-62. doi: 10.1080/00016489.2017.1397744. PMID: 29130359.

SORDERA SÚBITA IDIOPÁTICA: FACTORES PRONÓSTICOS Y RESULTADOS DEL TRATAMIENTO
DE RESCATE CON DEXAMETASONA INTRATIMPÁNICA
BENITO-OREJAS JI, RAMÍREZ-SALAS JE, MENA-DOMÍNGUEZ EA ET AL.

ANEXO 1

Tabla 1. Población de estudio. Diferencias de PTA (Pure Tone Average) en función del tipo de tratamiento y de los factores pronósticos considerados.

| | N | EDAD | PTA inicial | PTA 3 meses | Diferencia PTA | Valor de p (<0,005) en diferencias de PTA |
|---|---|-------------------------------|------------------------------------|------------------------------------|---------------------------------|---|
| POBLACIÓN: | | | | | | |
| POBLACIÓN GLOBAL: Tto sistémico y tto sistémico+ IT (2000-2019) | 169/169 (100%) | 54,8 | 72,3±26 | 56,4±31 | 15,9 | <0,001 |
| Con tto sistémico (2000-19) - Primer período (2000-2009) - Segundo período (2010-2019) - Valor de p (<0,005) | 99/99 (100%) 60/99(61%) 39/99 (39%) | 55,1 50,7 61,7 0,004 | 71,5±26 70,08 73,87 0,425 | 51,9±33 50,25 54,61 0,522 | 19,6 19,83 19,26 0,883 | 0,002, significativamente mayor en quienes reciben tto general (19,6) que en quienes se les aplica además tto IT (10,6). <0,001 (entre TS y TS (VO) + CIT) 0,060 (entre TS y TS (IV) + CIT) |
| Con tto sistémico (VO o parenteral) e IT (2010-19) - Corticoide VO e IT - Corticoide parenteral e IT - Valor de p (<0,005) | 69/70 (99%) 17/63 (27%) 46/63 (73%) | 54,5 56,1 54,1 0,676 | 73,4±26 60,41 79,91 0,011 | 62,8±26 56,47 66,63 0,141 | 10,6 3,9 13,3 0,031 | |
| FACTORES PRONÓSTICO: | | | | | | |
| Con antecedentes vasculares | 76/170 (45%) | 64,81 | 76,8±24 | 61,6±27 | 15,15 | 0,586 |
| Sin antecedentes vasculares - Valor de p (<0,005) | 94/170 (55%) | 46,86 0,000 | 68,6±27 0,033 | 51,9±32 0,038 | 16,76 | |
| Con alteración inmunitaria | 34/124 (27%) | 49,35 | 69,8±30 | 52,9±35 | 16,94 | 0,589 |
| Sin alteración inmunitaria - Valor de p (<0,005) | 90/124(72,5%) | 55,14 0,094 | 73,5±25 0,567 | 58,7±30 0,367 | 14,75 | |
| Con antecedentes víricos | 12/170 (7%) | | | | | 0,395 |
| Con acúfenos | 95/162 (59%) | 51,66 | 69,7±25 | 52,3±30 | 17,35 | |
| Sin acúfenos - Valor de p (<0,005) | 67/162 (41%) | 58,1 0,002 | 76±26 0,134 | 61,3±31 0,122 | 8,73 | |
| Con síntomas vestibulares | 43/170 (25%) | 55,69 | 81,3±28 | 70,6±33 | 10,63 | 0,011 |
| Sin síntomas vestibulares - Valor de p (<0,005) | 127/170 (75%) | 54,82 0,936 | 69,8±25 0,031 | 52±29 0,002 | 17,82 | |
| Con hipoacusia contralateral (> 20 dB HL) | 63/170 (37%) | 64,6 | 70,6±23 | 57,9±24 | 12,73 | 0,352 |
| Sin hipoacusia contralateral | 107/170 (63%) | 49,16 | 73,5±28 | 55,2±34 | 18,38 | |
| Con mejoría ≥ 10 dB el 4º día de tratamiento sistémico - Con tratamiento sistémico - Con tratamiento sistémico y de rescate IT | 53/162 (33%) 40/99 (40%) 12/63 (19%) | 51,24 51,47 50,53 | 67,0±17 64,57 74,76 | 36,1±17 32,67 47 | 30,9 (<0,001) 31,9 27,76 | Diferencia PTA > o < 10 dB = 0.000 0,454 0,187 0,010 |
| Sin mejoría de 10 dB el 4º día de tratamiento sistémico - Con tratamiento sistémico - Con tratamiento sistémico y de rescate IT | 110/162 (68%) 59/99 (60%) 51/63 (81%) | 56,20 57,18 55,07 | 75,8±29 76,32 75,29 | 66,4±32 65,05 68,01 | 9,42 (<0,001) 11,27 7,28 | |
| . Con tratamiento VO y rescate IT | 14/51 (27%) | 58 | 59,14 | 58,71 | 0,43 | |
| . Con tratamiento IV y rescate IT | 37/51 (73%) | 54 | 81,4 | 71,54 | 9,86 | |

SORDERA SÚBITA IDIOPÁTICA: FACTORES PRONÓSTICOS Y RESULTADOS DEL TRATAMIENTO
DE RESCATE CON DEXAMETASONA INTRATIMPÁNICA
BENITO-OREJAS JI, RAMÍREZ-SALAS JE, MENA-DOMÍNGUEZ EA ET AL.

| | N | EDAD | PTA inicial | PTA 3 meses | Diferencia PTA | Valor de p (<0,005) en diferencias de PTA |
|-------------------------------------|----------------|-------|-------------|-------------|----------------|--|
| Edad: | | | | | | |
| < 40 años | 35/168 (21%) | | 63,6 | 48,42 | 15,18 | 0,752 |
| 41-50 años | 27/168 (16%) | | 68 | 48,92 | 19,08 | |
| 51-60 años | 39/168 (23%) | | 74,12 | 57,35 | 16,77 | |
| 61-70 años | 36/168 (21%) | | 77,08 | 59,8 | 17,28 | |
| > 70 años | 31/168 (18%) | | 77,77 | 65,7 | 12,07 | |
| Configuración de la hipoacusia: | | | | | | |
| Hipoacusia en tonos graves y medios | 32/147 (22%) | 48,8 | 49,87 | 37,25 | 12,62 | 0,063 |
| Hipoacusia de tonos agudos | 24/147 (16%) | 57,1 | 68,62 | 56,95 | 11,67 | |
| Hipoacusia plana | 91/147 (62%) | 55,4 | 78,03 | 58,13 | 19,9 | |
| Grado de hipoacusia: | | | | | | |
| Leve (< 40 dB HL) | 17/162 (10,5%) | 41,05 | 29,47 | 21,70 | 7,77 | Diferencia de PTA en hipo severa significativamente mayor. |
| Moderada (41 a 70 dB HL) | 66/162 (41%) | 54,31 | 57,83 | 43,62 | 14,21 | |
| Severa (71 a 90 dB HL) | 41/162 (25%) | 57,04 | 79,78 | 53,92 | 25,86 | |
| Profunda (> 90 dB HL) | 38/162 (23%) | 57,34 | 109,75 | 96,56 | 13,19 | |

ANEXO 2

Tabla 2. Población de estudio. Grado de recuperación (completa: diferencia < 10 dB con el oído contralateral (o PTA-3m < 25 dB si el contra está sano), parcial: diferencia ≥ 10 dB con el oído sano y nula: mejoría < 10 dB), en función del tipo de tratamiento y de los factores pronósticos considerados. Se somborean los valores con significación estadística (p < 0,05).

| | N | EDAD | Recuperación completa | Recuperación parcial | Recuperación nula | Valor de p (<0,05) |
|---|----------------|-------|-----------------------|----------------------|-------------------|----------------------------------|
| POBLACIÓN: | | | | | | |
| POBLACIÓN GLOBAL: Tto sistémico y tto sistémico+ IT (2000-2019) | 169/169 (100%) | 54,8 | 32/163 (20%) | 57/163 (35%) | 74/163 (45%) | |
| Con tto sistémico (2000-19) | 99/99 (100%) | 55,1 | | | | 0,0002 (entre TS y TS + CIT) |
| - Primer período (2000-2009) | 60/99(61%) | 50,7 | 29/97 (30%) | 33/97 (34%) | 35/97 (36%) | |
| - Segundo período (2010-2019) | 39/99 (39%) | 61,7 | | | | |
| Con tto sistémico (VO o parenteral) e IT (2010-19) | 69/70 (99%) | 54,5 | 3/66 (5%) | 24/66 (36%) | 39/66 (59%). | 0,1263 (entre VO + IT y IV + IT) |
| - Corticoide VO e IT | 17/63 (27%) | 56,1 | 1/17 (6%) | 3/17 (18%) | 13/17 (76%) | |
| - Corticoide parenteral e IT | 46/63 (73%) | 54,1 | 2/46 (4%) | 21/46 (46%) | 23/46 (50%) | |
| FACTORES PRONÓSTICO: | | | | | | |
| Con antecedentes vasculares | 76/170 (45%) | 64,81 | 8/76 (11%) | 35/76 (46%) | 33/76 (43%) | 0,023 |
| Sin antecedentes vasculares | 94/170 (55%) | 46,86 | 23/94 (24%) | 28/94 (30%) | 43/94 (46%) | |
| Con alteración inmunitaria | 34/124 (27%) | 49,35 | 9/34 (26%) | 11/34 (32%) | 14/34 (41%) | 0,150 |
| Sin alteración inmunitaria | 90/124(72,5%) | 55,14 | 11/90 (12%) | 32/90 (36%) | 47/90 (52%) | |

(continuada)

SORDERA SÚBITA IDIOPÁTICA: FACTORES PRONÓSTICOS Y RESULTADOS DEL TRATAMIENTO
DE RESCATE CON DEXAMETASONA INTRATIMPÁNICA
BENITO-OREJAS JI, RAMÍREZ-SALAS JE, MENA-DOMÍNGUEZ EA ET AL.

Tabla 2. Población de estudio. Grado de recuperación (completa: diferencia < 10 dB con el oído contralateral (o PTA-3m < 25 dB si el contra está sano), parcial: diferencia ≥ 10 dB con el oído sano y nula: mejoría < 10 dB), en función del tipo de tratamiento y de los factores pronósticos considerados. Se somborean los valores con significación estadística (p < 0,05). (continuada)

| | N | EDAD | Recuperación completa | Recuperación parcial | Recuperación nula | Valor de p (<0,05) |
|---|----------------|-------|-----------------------|----------------------|-------------------|--------------------|
| Con acúfenos | 95/162 (59%) | 51,66 | 21/95 (22%) | 36/95 (38%) | 38/95 (40%) | 0,538 |
| Sin acúfenos | 67/162 (41%) | 58,1 | 11/67 (16%) | 24/67 (36%) | 32/67 (48%) | |
| Con síntomas vestibulares | 43/170 (25%) | 55,69 | 5/43 (12%) | 19/43 (44%) | 19/43 (44%) | 0,363 |
| Sin síntomas vestibulares | 127/170 (75%) | 54,82 | 27/129 (21%) | 47/129 (36%) | 55/129 (43%) | |
| Con hipoacusia contralateral (> 20 dB HL) | 63/170 (37%) | 64,6 | 5/63 (8%) | 18/63 (29%) | 40/63 (63%) | 0,001 |
| Sin hipoacusia contralateral | 107/170 (63%) | 49,16 | 27/107 (25%) | 41/107 (38%) | 39/107 (36%) | |
| Con mejoría ≥ 10 dB el 4º día de tratamiento sistémico | 53/162 (33%) | 51,24 | 20/53 (38%) | 30/53 (57%) | 3/53 (6%) | <0,001 |
| - Con tratamiento sistémico | 40/99 (40%) | 51,47 | 18/40 (45%) | 21/40 (52,5%) | 1/40 (2,5%) | |
| - Con tratamiento sistémico y de rescate IT | 13/63 (19%) | 50,53 | 2/13 (15%) | 9/13 (69%) | 2/13 (15%) | |
| Sin mejoría de 10 dB el 4º día de tratamiento sistémico | 110/162 (68%) | 56,20 | 12/110 (11%) | 29/110 (26%) | 69/110 (63%) | 0,009 |
| - Con tratamiento sistémico | 59/99 (60%) | 57,18 | 11/59 (19%) | 17/59 (29%) | 31/59 (53%) | |
| - Con tratamiento sistémico y de rescate IT | 51/63 (81%) | 55,07 | 1/51 (2%) | 12/51 (24%) | 38/51 (75%) | |
| Edad: | | | | | | |
| < 50 años | 62/168 (37%) | | 17/62 (27%) | 16/62 (26%) | 29/62 (47%) | 0,011 |
| >50 años | 106/168 (63%) | | 12/106 (11%) | 45/106 (42%) | 49/106 (46%) | |
| Configuración de la hipoacusia: | | | | | | |
| Hipoacusia en tonos graves y medios | 32/147 (22%) | 48,8 | 10/32 (31%) | 8/32 (25%) | 14/32 (44%) | 0,134 |
| Hipoacusia de tonos agudos | 24/147 (16%) | 57,1 | 1/24 (4%) | 11/24 (46%) | 12/24 (50%) | |
| Hipoacusia plana | 91/147 (62%) | 55,4 | 20/91 (22%) | 34/91 (37%) | 37/91 (41%) | |
| Grado de hipoacusia | | | | | | |
| Leve (< 40 dB HL) | 17/162 (10,5%) | 41,05 | 8/17 (47%) | 1/17 (6%) | 8/17 (47%) | 0,001 |
| Moderada (41 a 70 dB HL) | 66/162 (41%) | 54,31 | 17/66 (26%) | 18/66 (27%) | 31/66 (47%) | |
| Severa (71 a 90 dB HL) | 41/162 (25%) | 57,04 | 7/41 (17%) | 22/41 (54%) | 12/41 (29%) | |
| Profunda (> 90 dB HL) | 38/162 (23%) | 57,34 | 0/38 (0%) | 16/38 (42%) | 22/38 (58%) | |

TRATAMIENTO QUIRÚRGICO DE LA PATOLOGÍA TUMORAL DE LA GLÁNDULA PARÓTIDA. ESTUDIO DESCRIPTIVO DE 263 PAROTIDECTOMÍAS

Surgical treatment of tumor pathology of the parotid gland. Descriptive study of 263 parotidectomies

María del Mar MARTÍNEZ-RUIZ-COELLO ¹; Estefanía HERNÁNDEZ-GARCÍA ²; Estefanía MIRANDA-SÁNCHEZ ¹; Cristina GARCÍA-GARCÍA ¹; Óscar ARENAS-BRÍTEZ ²; Guillermo PLAZA-MAYOR ³

¹Hospital Universitario de Fuenlabrada. Servicio Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Madrid. España.

²Hospital Universitario de Fuenlabrada y Hospital Universitario La Zarzuela. Servicio Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Madrid. España.

³Hospital Universitario de Fuenlabrada y Hospital Universitario La Zarzuela. Jefe de Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Universidad Rey Juan Carlos. Madrid. España.

Correspondencia: marmruizcoello@hotmail.com

Fecha de recepción: 8 de julio de 2022

Fecha de aceptación: 9 de agosto de 2022

Fecha de publicación: 11 de agosto de 2022

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

RESUMEN: Introducción y objetivo: Los tumores salivales representan el 3-10% de los tumores de cabeza y cuello, siendo el 75-80% de origen parotídeo y en su mayoría benignos. La parotidectomía es una técnica quirúrgica que consiste en la exéresis de la glándula parótida. Existen diversos tipos; parotidectomía superficial (PS), parotidectomía superficial parcial (PSP) y parotidectomía total (PT). En esta última, al no respetarse el nervio facial (NF), las complicaciones son más frecuentes. Nuestro objetivo es analizar el resultado (tasa de recidiva y complicaciones) de la parotidectomía como técnica quirúrgica empleada

TRATAMIENTO QUIRÚRGICO DE LA PATOLOGÍA TUMORAL DE LA GLÁNDULA PARÓTIDA.
ESTUDIO DESCRIPTIVO DE 263 PAROTIDECTOMÍAS

MARTÍNEZ-RUIZ-COELLO MM, HERNÁNDEZ-GARCÍA E, MIRANDA-SÁNCHEZ E ET AL.

en el manejo de la patología parotídea, así como evaluar qué prueba complementaria es la más eficaz en el diagnóstico prequirúrgico de la patología parotídea tumoral. Material y método: Se realiza un estudio retrospectivo incluyendo 263 pacientes tratados mediante PS o PT entre enero de 2004 y diciembre de 2020 en el Hospital Universitario de Fuenlabrada. Se registraron datos demográficos, tiempo de evolución de la lesión, pruebas complementarias, protocolo quirúrgico y complicaciones postoperatorias. Se analiza principalmente la correlación positiva entre las pruebas realizadas prequirúrgicas (PAAF, ecografía, TC y RMN), con el diagnóstico definitivo anatomopatológico obtenido tras examinar la pieza quirúrgica. También se describe la tasa de paresia y parálisis facial y otras complicaciones habidas. Resultados: Se incluyeron 263 pacientes tratados mediante parotidectomía. El tiempo de evolución medio de las lesiones parotídeas fue de 15 meses (DE 19.88). La sensibilidad de la PAAF en nuestro estudio fue de 68.7%. Se realizó ecografía en un 44.10% de los pacientes, TC en un 77.94% y RMN en un 15.20%, mostrando una sensibilidad de 18.05%, 31.21% y 45%, respectivamente. La cirugía más frecuente fue la PS (43.3%, 114/263), seguida por la PSP (41.1%, 108/263) y, por último, la menos habitual fue la PT (15.58%, 41/263). Los tumores benignos fueron más frecuentes (84.79%, 223/263), siendo el adenoma pleomorfo el más frecuente, 45.73% (102/223). Dentro del grupo de tumores malignos (15.20%, 40/263), el más habitual fue el carcinoma mucoepidermoide (17.5%, 7/40) y las metástasis (17.5%, 7/40). La paresia facial, según la escala de House-Brackmann, fue leve (grado I y II) y transitoria en la mayoría de los casos, apareciendo en un 31.55%. Tras un periodo medio de seguimiento de 6 años no se han encontrado recidivas post parotidectomía por ningún tipo tumoral en nuestro estudio. Conclusión: En nuestra muestra, los tumores benignos representaron la gran mayoría de la patología parotídea. Dentro de este grupo, el adenoma pleomorfo fue el más frecuente. La PAAF fue la prueba complementaria con mejor correlación con el diagnóstico anatomopatológico definitivo, seguida por la RMN. La paresia facial leve (grados I y II) y transitoria fue la complicación postquirúrgica más habitual.

PALABRAS CLAVE: Parótida; tumor; diagnóstico; parotidectomía; complicaciones

SUMMARY: Introduction and objective: Salivary tumors account for 3-10% of head and neck tumors, 75-80% being of parotid origin and mostly benign. Parotidectomy is a surgical technique that consists of exeresis of the parotid gland. There are various types; Superficial parotidectomy (PS), partial superficial parotidectomy (PSP), and total parotidectomy (PT). In the latter, since the facial nerve (FN) is not spared, complications are more frequent. Our objective is to analyze the outcome (recurrence rate and complications) of parotidectomy as a surgical technique used in the management of parotid pathology, as well as to evaluate which complementary test is the most effective in the pre-surgical diagnosis of tumorous parotid pathology. Material and methods: We performed a retrospective study including 263 patients treated by SP or TP between January 2004 and December 2020 at the Fuenlabrada University Hospital. Demographic data, time of lesion evolution, complementary tests, surgical protocol and postoperative complications were recorded. The positive correlation between the pre-surgical tests performed (Fine needle aspiration (FNA), ultrasound, CT and MRI) and the definitive anatomopathological diagnosis obtained after examining the surgical specimen is analyzed. The rate of paresis/facial paralysis and other complications is also described. Results: We included 263 patients treated by parotidectomy. The mean time of evolution of the parotid lesions was 15 months (SD 19.88). The sensitivity of FNA in our study was 68.7%. Ultrasound was performed in 44.10% of patients (116/263), CT in 77.94% (205/263) and MRI in 15.20% (40/263), showing a positive correlation of 18.05%, 31.21% and 45%, respectively. The most frequent surgery was SP 43.3%, (114/263), closely followed by PSP (41.1%, 108/263) and finally the least common was TP (15.58%, 41/263). Benign tumors were more prevalent 84.79%, (223/263), with pleomorphic adenoma being the most frequent, 45.73% (102/223). Within the group of malignant tumors 15.20%, (40/263), the most common subtype was mucoepidermoid carcinoma (17.5%, 7/40) and metastases (17.5%, 7/40). Facial paresis, according to the

House-Brackmann scale, was mild (grade I and II) and transient in most cases, appearing in 31.55%. After a mean follow-up period of 6 years, no recurrences were found in our study. Conclusion: In our sample, benign tumors represented the majority of parotid pathology. Within this group, pleomorphic adenoma was the most frequent. FNA was the complementary test with the best correlation with the definitive anatomicopathologic diagnosis, followed by MRI. Mild and transitory facial paresis (grades I and II) was the most common post-surgical complication.

KEYWORDS: Parotid; tumor; diagnosis; parotidectomy; complications

INTRODUCCIÓN

La glándula parótida es la mayor de las glándulas salivales, situándose en la región preauricular y a lo largo del borde posterior de la mandíbula. Se describen clásicamente un lóbulo superficial y uno profundo, separados por el nervio facial (NF) y sus ramas [1]. Los tumores salivales representan el 3-10% de los tumores de cabeza y cuello, siendo el 75-80% de origen parotídeo y en su mayoría benignos (80%). Los tumores benignos de la glándula parótida más frecuentes son el adenoma pleomorfo (AP), que supone aproximadamente un 65%, y el tumor de Warthin (TW), que constituye un 25% de los tumores benignos. La mayoría de estos tumores se localizan en el lóbulo superficial [2].

El AP aparece comúnmente en la cuarta década de vida y, a pesar de su benignidad, tiene una alta tendencia a degenerar, recidivar y producir metástasis, de ahí la importancia de su correcto tratamiento [2]. El TW aparece mayoritariamente en pacientes varones durante la quinta década de la vida y constituye un tumor tendente a la multicentricidad [1,2]. Respecto a los tumores malignos, el más frecuente es el carcinoma mucoepidermoide, seguido por el carcinoma exadenoma pleomorfo y el carcinoma de células acinares.

La presentación clínica habitual de los tumores de parótida consiste en la aparición de una masa asintomática y palpable a nivel preauricular. Para su diagnóstico, la punción aspiración con aguja fina (PAAF) guiada por ecografía suele garantizar la obtención de material que ofrezca un diagnóstico citológico de presunción [3]. También suelen

ser necesarios estudios de imagen mediante TC y RMN [4].

Quer et al. han propuesto una clasificación de las parotidectomías por áreas, permitiendo definir con claridad la cirugía realizada en cada caso y estandarizando la resección realizada [5-7]. De esta forma surge la parotidectomía superficial parcial (PSP), la cuál consiste en una PS donde se realiza la exéresis de las áreas afectadas por el tumor con márgenes libres, evitando, cuando es posible, reseca la totalidad del lóbulo superficial. Esta opción quirúrgica supone una tasa menor de complicaciones a corto y largo plazo con un porcentaje de recidivas similar a la PS [8, 9].

El tratamiento de elección para los tumores parotídeos es el quirúrgico. La disección del nervio facial representa el momento más delicado de la intervención ya que, si se daña, el paciente desarrolla una parálisis facial postquirúrgica [1]. La técnica más habitual es la parotidectomía superficial (PS) con preservación del tronco y ramas del NF [5], permite reducir la tasa de recidivas frente a las enucleaciones, y reducir las complicaciones (Figura 1). En otras ocasiones, por su localización o histología, es necesaria la parotidectomía total (PT), tras la que son más frecuentes las complicaciones, como paresia o parálisis facial [2,5].

Entre las complicaciones de la parotidectomía, la más importante es la lesión del NF. Es conveniente diferenciar la paresia facial leve (grados I-II de House-Brackmann) y transitoria que se produce como consecuencia de una disección algo laboriosa y que tiene un pronóstico excelente, de la parálisis facial completa, inmediata y grave, que se produce

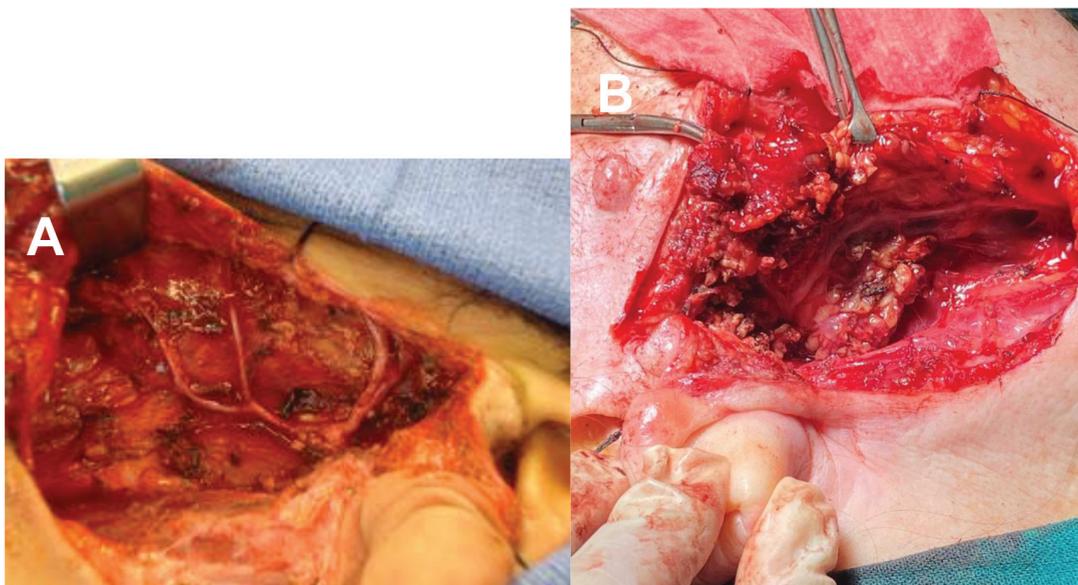


Figura 1. Imagen A: Parotidectomía superficial izquierda. Imagen B: Parotidectomía superficial derecha. En ambas imágenes intraoperatorias se visualiza el tronco del nervio facial y algunas de sus ramas.

como consecuencia de la lesión directa del nervio [3, 10-11]. Con el objetivo de evitar esta complicación surge la monitorización intraoperatoria del nervio facial (MINF) intraoperatoria [12-13].

Otra posible complicación posparotidectomía es el síndrome de Frey [14-15]. Se caracteriza por la aparición de enrojecimiento y sudoración en la región parotídea durante las comidas. Su patogenia sigue siendo discutida [16]. Otra complicación frecuente que aparece como secuela en el seguimiento de estos pacientes es la hipostesia temporauricular. Consiste en una pérdida de la sensibilidad que abarca desde pabellón auricular hasta 4 cm por delante del trago; siendo el resto de la exploración normal [15]. Su patogenia sigue siendo discutida. La hipótesis más aceptada argumenta que durante la parotidectomía se seccionan las fibras parasimpáticas destinadas a la parótida. Posteriormente, se produce una regeneración nerviosa aberrante de estas que acaban contactando con las glándulas sudoríparas y los vasos, dando la clínica

explicada anteriormente. Para evitar este proceso se usa el colgajo del sistema músculo-aponeurótico superficial (SMAS), que se interpone, en forma de barrera anatómica, entre las fibras parasimpáticas parotídeas y las glándulas sudoríparas [16].

El objetivo de este estudio fue evaluar la prueba complementaria más eficaz en el diagnóstico preoperatorio de los tumores de la glándula parótida y evaluar el resultado de la parotidectomía en el tratamiento de estas neoplasias.

MATERIAL Y MÉTODO

Se trata de un estudio retrospectivo descriptivo incluyendo pacientes tratados mediante parotidectomía superficial, superficial parcial o total, según la clasificación de Quer [5-7], entre enero de 2004 y diciembre de 2020 en el Hospital Universitario de Fuenlabrada.

Partiendo de una base de datos recogida en el sistema informático Selene de nuestro hospital,

TRATAMIENTO QUIRÚRGICO DE LA PATOLOGÍA TUMORAL DE LA GLÁNDULA PARÓTIDA.
ESTUDIO DESCRIPTIVO DE 263 PAROTIDECTOMÍAS

MARTÍNEZ-RUIZ-COELLO MM, HERNÁNDEZ-GARCÍA E, MIRANDA-SÁNCHEZ E ET AL.

se registraron datos demográficos (edad y sexo), tiempo de evolución, pruebas complementarias realizadas (PAAF, ecografía, TC y RMN), protocolo quirúrgico (tipo de cirugía), y aparición de complicaciones postoperatorias.

Dentro de las complicaciones postoperatorias se hizo principal hincapié en la parálisis facial, evaluando el grado según la escala de House-Brackmann, y su temporalidad según si fue permanente (>6 meses) o transitoria (<6 meses). Además, se recoge el porcentaje de aparición de seromas y síndromes de Frey, como otras posibles complicaciones. Se analiza también la sensibilidad de las pruebas diagnósticas realizadas prequirúrgicas, como son: PAAF, ecografía, TC y RMN, comprobándola con el diagnóstico definitivo anatomopatológico obtenido tras examinar la pieza quirúrgica. También se describe la tasa de recidiva ocurrida en el tiempo de seguimiento.

Se excluyeron del estudio pacientes menores de edad y que no cumplieron un seguimiento mínimo de un año. Al ser un estudio retrospectivo descriptivo, se utilizó como medida proporciones.

RESULTADOS

Se incluyeron 263 pacientes tratados de patología tumoral salival primaria mediante parotidectomía (Tabla 1). Un 55.13% de los casos fueron varones y el 45.24% mujeres. La edad media fue de 51.26 años (DE 15.36). El tiempo de evolución medio de las tumoraciones parotídeas presentadas fue de 15 meses (DE 19.88), aunque un 21.67% no supieron precisar el tiempo exacto.

En cuanto a las pruebas complementarias (Tabla 2), se realizó PAAF en un 96.19% (253/263) de los pacientes, encontrando como diagnóstico citológico más frecuente el AP (35.36%, 93/253). Un 68.37% (173/253) de las citologías realizadas mostraron una correlación positiva, coincidiendo con el diagnóstico definitivo. Un 3.95% (10/253) indicaban benignidad o malignidad sin concretar el tipo de tumor. Se realizó ecografía en un 44.10% de

Tabla 1. Resumen de los resultados del estudio (N=263 pacientes).

| Parámetro | N (%) |
|------------------------------------|-------------|
| Número de casos | 263 |
| Hombres | 145 (55.13) |
| Mujeres | 118 (45.24) |
| Edad media (años) | 51.26 |
| <i>Tumor</i> | |
| Benignos | 233 (84.8) |
| Adenoma pleomorfo | 102 (45.73) |
| Tumor de Warthin | 75 (33.63) |
| Malignos | 40 (15.20) |
| Carcinoma mucoepidermoide | 7 (17.5) |
| Metástasis | 7 (17.5) |
| Adenocarcinoma | 6 (2.28) |
| Carcinoma adenoide quístico | 4 (1.52) |
| Inflamación o sialodentitis | 8 (3.04) |
| No alteración | 4 (1.52) |
| <i>Cirugía</i> | |
| Parotidectomía superficial | 114 (43.3) |
| Parotidectomía superficial parcial | 108 (41.1) |
| Parotidectomía total | 41 (15.58) |

Tabla 2. Sensibilidad de las técnicas diagnósticas empleadas.

| Técnica diagnóstica | Pacientes (n) | Sensibilidad de la técnica |
|---------------------|---------------|----------------------------|
| PAAF | 253 | 68.37% |
| TC | 205 | 31.21% |
| Ecografía | 116 | 18.05% |
| RMN | 40 | 45% |

los pacientes (116/263), TC en un 77.94% (205/263) y RMN en un 15.20% (40/263), mostrando una correlación positiva del 18.05%, 31.21% y 45% respectivamente.

La cirugía más frecuente fue la PS (43.3%, 114/263) (Figura 1), seguida por la PSP (41.1%, 108/263) y, por último, la PT (15.58%, 41/263).

Mediante la cirugía, se consiguió márgenes libres en un 77.94% de los pacientes intervenidos.

De 263 pacientes en 233 la histología resultó benigna y en 40 maligna. Dentro de los tumores benignos, el AP fue el tumor más frecuente, encontrado en un 45.73% (102/223). El TW ocupa el segundo lugar (33.63%, 75/223). El AP apareció en un mayor porcentaje en mujeres que en hombres (58.82% vs 41,17%), mientras que el TW fue más frecuente en varones (74.66%, 56/75). Entre los tumores malignos (15.20%, 40/263), el tumor más habitual fue el carcinoma mucoepidermoide (17.5%, 7/40) y las metástasis (17.5%, 7/40). El adenocarcinoma se presentó en un 2.28% (6/263) y el carcinoma adenoide quístico en un 1.52% (4/263) de los pacientes. Un 3.04% (8/263) mostraron inflamación o sialoadenitis y un 1.52% (4/263) no mostraron alteraciones (Tabla 1).

La paresia facial fue la complicación más frecuente (Tabla 3), apareciendo en un 50.94% (134/263), siendo marginal en un 50.74% (68/134). Los grados de paresia (según la escala de House-Brackmann) más comunes fueron leves, I en 53% (57/134,) y II, en 39.55% (53/134) respectivamente. La parálisis facial fue permanente en un 11.4% (30/263) de los pacientes. Entre los pacientes que presentaron parálisis facial permanente, un 93.3% (28/30) tenían un diagnóstico anatomopatológico, ya sea previo mediante PAAF, o tras analizar la pieza quirúrgica, de tumor maligno. Un 18.25% (48/263) padecieron síndrome de Frey postoperatorio, y un 30.41% (80/263) seromas transitorios. Tras un periodo medio de seguimiento de 6 años y mínimo de 1 año, no se han encontrado recidivas post parotidectomía en nuestro estudio.

DISCUSIÓN

Los tumores de las glándulas salivales acontecen en aproximadamente el 2-3% de todas las neoplasias de cabeza y cuello. La mayoría de estos tumores se originan en la glándula parótida, siendo

Tabla 3. Incidencia de complicaciones en nuestro estudio. *Entre los pacientes que presentaron parálisis facial permanente, un 93,3% (28/30) tenían un diagnóstico anatomopatológico, ya sea previo mediante PAAF, o tras analizar la pieza quirúrgica, de tumor maligno.

| Complicación | Pacientes (n) | Porcentaje |
|------------------------------|---------------|------------------|
| Paresia facial | 134 | 50.94% (134/263) |
| Grado I | 57 | 53% (57/134) |
| Grado II | 53 | 39.55% (53/134) |
| Grado III o más | 24 | 17% (24/134) |
| Parálisis facial permanente* | 30 | 11.4% (30/263) |
| Sd. De Frey | 48 | 18.25% (48/263) |
| Seroma | 80 | 30.4% (80/263) |

aproximadamente un 85% de ellos benignos [2-3, 17-18].

En cuánto a las pruebas complementarias, la ecografía es una prueba no invasiva, rápida y fácil que ayuda a identificar, medir y clasificar los tumores salivares. Nos ayuda a dirigir el diagnóstico mostrando hallazgos sugerentes de benignidad o malignidad, muy importantes a la hora de elegir la siguiente prueba complementaria para definir el diagnóstico. Además, se puede combinar con la PAAF, aumentando el valor predictivo positivo (VPP) de la prueba. Por otro lado, permite evidenciar ganglios linfáticos adyacentes a la glándula, muy útil en los tumores malignos ya que podría cambiar la decisión quirúrgica [19, 20]. En nuestro trabajo la primera prueba a realizar por su disponibilidad e inocuidad fue la ecografía en la mayoría de los pacientes. Combinada con la PAAF, ambas pruebas nos orientaron en un primer momento sobre la etiología de la lesión que presentaron nuestros pacientes, facilitándonos la toma de decisiones. La PAAF es la principal herramienta diagnóstica inicial de las masas de cabeza y cuello, siendo un procedimiento seguro, rentable, rápido e indoloro [21].

Cuando la PAAF es realizada por profesionales experimentados e interpretada en el contexto de la información clínica, puede ser una prueba muy eficaz para diagnosticar la naturaleza del tumor. Marzouki et al. [22] definen la PAAF como una prueba altamente específica, pero solo moderadamente sensible. En nuestro trabajo, la precisión general de la PAAF fue del 68%, siendo mayor para patología benigna. Según Altin et al. [23], la precisión diagnóstica de la biopsia por PAAF al detectar malignidad fue del 86,52%, siendo la sensibilidad y especificidad del 68,96% y 89,63% respectivamente. En los tumores que se extendían al lóbulo profundo, la sensibilidad fue del 80%. Por ello, concluyeron que la PAAF es una importante herramienta diagnóstica para evaluar los tumores de la glándula parótida, siendo más precisa en la detección de tumores benignos, coincidiendo con nuestras conclusiones. Para Bova et al. [24], la sensibilidad y la especificidad de la PAAF para los tumores parotídeos benignos fueron del 76% y el 97%, respectivamente, y para tumores malignos fue del 90% y 99%. La precisión general de PAAF en este grupo de estudio fue del 81%. En ambos estudios [23,24], la precisión diagnóstica fue algo mayor que en nuestro estudio (68%).

La RM se ha considerado el *gold standard* en el diagnóstico para los tumores de la glándula parótida [25]. Puede identificar y diferenciar los tumores parotídeos del lóbulo profundo de los tumores del espacio parafaríngeo, lo que permite también la detección de la diseminación perineural y perivascular. Las principales desventajas del método incluyen el tiempo prolongado para la adquisición de imágenes, el alto coste, la susceptibilidad a los artefactos de movimiento y una resolución más baja para la evaluación ósea en comparación con la TC [26]. En el estudio de Zohair et al. [27], el 26% de los pacientes se beneficiaron de RM. Se diagnosticó un tumor benigno en el 63% de los pacientes y un tumor maligno en el 37% de los pacientes. El valor predictivo del tipo de tumor histológico de la RM en este estudio para tumores

benignos parece bastante fiable, oscilando entre el 80 y el 100% (particularmente para AP). Estos resultados coinciden con nuestro estudio en cuanto a la fiabilidad de la RM para diagnosticar tumores benignos asentados en la glándula parótida.

El tratamiento tradicional de los tumores parotídeos benignos consiste en la disección del NF llevando a cabo una PS o PT. Actualmente no hay acuerdo en la literatura en cuanto a la extensión de la resección para obtener un margen adecuado en tumores benignos [1-13,17-18, 24-28]. En la práctica actualmente perviven diferentes opciones quirúrgicas que de menor a mayor resección se pueden resumir en: enucleación, disección extracapsular (DEC), parotidectomías laterales parciales, parotidectomías laterales y PT [5, 24-28]. Quer et al. [5-7] propusieron una clasificación de la parotidectomía donde se especifica qué áreas glandulares se resecan para poder sistematizar las cirugías más a demanda de las lesiones. Las técnicas más reproducidas en la actualidad son la PS y la DEC [24-28]. Se ha tratado de investigar qué técnica tiene menor recidivas y con menores efectos adversos, encontrando diferentes resultados en la literatura. Albergotti et al. [29] no observaron diferencias en la tasa de recurrencia del tumor o parálisis facial permanente entre PS y DEC cuando se aplicó a nódulos solitarios clínicamente benignos de la glándula parótida. La DEC parece tener una menor incidencia de parálisis transitoria del NF y síndrome de Frey, aunque existe la posibilidad de que la técnica se haya aplicado a tumores menos desafiantes en promedio. Para estos autores, la PS sigue siendo el *gold standard* en el tratamiento de tumores parotídeos benignos [29-30]. La principal diferencia entre la DEC y todas las demás formas de parotidectomía es que no incluye la exposición del NF en el tronco principal para lograr la eliminación del tumor [28]. En la actualidad, está ganando presencia la PSP, entendida como la técnica quirúrgica que, exponiendo el tronco del NF, reseca exclusivamente las áreas afectadas por el tumor [3-7].

Para mejorar la localización y evitar el daño de este nervio ha surgido la MINF. El uso rutinario de la MINF ha demostrado una mejor conservación de la función del NF [31]. Los datos sobre el uso de MINF durante la cirugía de la glándula parótida son aproximadamente del 75% de los cirujanos de cabeza y cuello en Alemania y más del 67-80% en el Reino Unido [32]. Sin embargo, el uso de MINF durante la cirugía de la glándula parótida en los EE.UU parece ser un tema de debate. Muchos autores creen que MINF puede disminuir el riesgo de debilidad postoperatoria inmediata y permanente del NF. Sin embargo, se necesitan ensayos aleatorios prospectivos adicionales para determinar si estos resultados pueden traducirse en una mayor seguridad quirúrgica y una mayor satisfacción del paciente [12-13, 24].

En cuanto a las complicaciones derivadas de la cirugía parotídea, numerosos artículos coinciden en que la parálisis facial es la complicación más relevante [10-13, 24, 33]. En la literatura se describe una frecuencia de parálisis transitoria del nervio facial que varía entre el 15 % y el 66 % en la cirugía parotídea primaria, mostrando una mayor tasa en la PT en comparación con la PS. Rara vez se observa parálisis permanente del NF, variando la prevalencia entre 2,5 y 5% de los casos [10]. En el estudio llevado a cabo por Thölken et al. [33], la tasa global de parálisis facial postoperatoria transitoria hasta cuatro días después de la operación fue del 15,0 % (45 pacientes). Entre estos 45 pacientes, 38 (12,7 %) pacientes, 3 (1,0 %) pacientes, 3 (1,0 %) pacientes y 1 (0,3 %) paciente tenían grados HB II, HB III, HB IV y HB V, respectivamente. La parálisis facial permanente ocurrió en 11 (3,7%) pacientes. Esos resultados son algo mejores que los hallados en nuestra muestra, si bien la mayoría de las parestias que tuvimos fueron transitorias, leves y afectando sobre todo la rama marginal. Varios trabajos concluyen que las complicaciones de la cirugía aumentan significativamente con la extensión de la intervención [17,33].

Otra posible complicación es el síndrome de Frey, el cual se caracteriza por enrojecimiento y sudoración en la zona intervenida debido a una inervación aberrante de las glándulas sudoríparas de la piel. Existen numerosas técnicas para tratar de prevenir este síndrome, siendo la más conocida la técnica SMAS [16]. Una vez establecido, se pueden paliar los síntomas mediante la infiltración de toxina botulínica sobre la zona afectada [14]. En nuestra serie, aparece en casi el 20% de los pacientes, coincidiendo con la literatura.

Otras complicaciones descritas en la literatura son; complicaciones locales frecuentes en la primera semana post cirugía como la infección local, la fístula salival, el seroma y el hematoma; Complicaciones sensitivas como la hipoestesia y la disestesia que irán disminuyendo en frecuencia según pase el tiempo postoperatorio; Problemas con la cicatriz facial, pudiendo existir hipertrofia, queloides o mala cicatrización [11, 34]. En nuestro estudio destaca el desarrollo de seromas, coincidiendo con lo encontrado en la literatura [11, 14, 32-34].

CONCLUSIONES

En nuestra muestra, los tumores benignos representaron la gran mayoría de la patología parotídea. Dentro de este grupo, el adenoma pleomorfo y el tumor de Warthin fueron los más frecuentes. Dentro de los tumores malignos destacaron el carcinoma mucoepidermoide, las metástasis y el adenocarcinoma. Estos resultados coinciden con la literatura revisada. La PAAF fue la prueba complementaria con mejor correlación con el diagnóstico anatomopatológico definitivo, seguida por la RMN.

La parálisis facial fue la complicación postquirúrgica mas habitual, siendo esta en su mayoría marginal y grados leves según la escala de House-Brackmann (I y II), así como resolviéndose antes de los 6 meses tras tratamiento quirúrgico. La aparición de seromas o de síndrome de Frey son

posibles complicaciones que no deben despreciarse tras realizar una parotidectomía.

AGRADECIMIENTOS

Me gustaría mostrar mi agradecimiento a los Servicios de Anatomía Patológica y de Radiodiagnóstico del Hospital Universitario de Fuenlabrada por la colaboración y la ayuda brindada en todo momento.

BIBLIOGRAFÍA

1. Kochhar A, Larian B, Azizzadeh B. Facial Nerve and Parotid Gland Anatomy. *Otolaryngol Clin North Am.* 2016;49(2):273-84. doi: 10.1016/j.otc.2015.10.002.
2. Plaza G, Aparicio JM. Patología de las glándulas salivales. Ponencia del XI Congreso de la AMORL. Fuenlabrada, junio de 2016. Madrid: ERGON. 2016. ISBN: 978-84-16732-08-1. Disponible en :http://www.amorl.es/images/pdf/ponencia_patologia_glandulas_salivales.pdf (consultado el 15 de junio de 2022).
3. Maahs GS, Oppermann, Maahs LG, Machado Filho G, Ronchi AD. Parotid gland tumors: a retrospective study of 154 patients. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2015;81(3):301-6. doi: 10.1016/j.bjorl.2015.03.007.
4. Chang YJ, Huang TY, Liu YJ, Chung HW, Juan CJ. Classification of parotid gland tumors by using multimodal MRI and deep learning. *NMR Biomed.* 2021;34(1):e4408. doi: 10.1002/nbm.4408.
5. Quer M, Vander Poorten V, Takes RP, Silver CE, Boedeker CC, de Bree R et al. Surgical options in benign parotid tumors: a proposal for classification. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2017;274(11):3825-3836. doi: 10.1007/s00405-017-4650-4.
6. Quer M, Guntinas-Lichius O, Marchal F, Vander Poorten V, Chevalier D, León X et al. Classification of parotidectomies: a proposal of the European Salivary Gland Society. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2016;273(10):3307-12. doi: 10.1007/s00405-016-3916-6.
7. Quer M, Pujol A, León X, López M, García J, Orús C et al. Parotidectomies in benign parotid tumours: "Sant Pau" surgical extension classification. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2010;61(1):1-5. doi: 10.1016/j.otorri.2009.10.003.
8. Plaza G, Amarillo E, Hernández-García E, Hernando M. The role of partial parotidectomy for benign parotid tumors: A case-control study. *Acta Otolaryngol.* 2015;135(7):718-21. doi: 10.3109/00016489.2015.1020394.
9. Hernando M, Plaza G. Tratamiento quirúrgico de los tumores de glándulas salivales. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2009;60(5):340-5. doi: 10.1016/j.otorri.2009.04.001.
10. Siddiqui AH, Shakil S, Rahim DU, Shaikh IA. Post parotidectomy facial nerve palsy: A retrospective analysis. *Pak J Med Sci.* 2020;36(2):126-130. doi: 10.12669/pjms.36.2.1706.
11. Infante-Cossio P, Gonzalez-Cardero E, Garcia-Perla-Garcia A, Montes-Latorre E, Gutierrez-Perez JL, Prats-Golczer VE. Complications after superficial parotidectomy for pleomorphic adenoma. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2018;23(4):e485-e492. doi: 10.4317/medoral.22386.
12. Chiesa-Estomba CM, Larruscain-Sarasola E, Lechien JR, Mouawad F, Calvo-Henriquez C, Diom ES et al. Facial nerve monitoring during parotid gland surgery: a systematic review and meta-analysis. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2021;278(4):933-943. doi: 10.1007/s00405-020-06188-0.
13. Guntinas-Lichius O, Eisele DW. Facial Nerve Monitoring. *Adv Otorhinolaryngol.* 2016;78:46-52. doi: 10.1159/000442124.
14. Motz KM, Kim YJ. Auriculotemporal Syndrome (Frey Syndrome). *Otolaryngol Clin North Am.* 2016;49(2):501-9. doi: 10.1016/j.otc.2015.10.010.
15. Bovenzi CD, Ciolek P, Crippen M, Curry JM, Krein H, Heffelfinger R. Reconstructive trends and complications following parotidectomy: incidence and predictors in 11,057 cases. *J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2019;48(1):64. doi: 10.1186/s40463-019-0387-y.
16. Wille-Bischofberger A, Rajan GP, Linder TE, Schmid S. Impact of the SMAS on Frey's syndrome after parotid surgery: a prospective, long-term study. *Plast Reconstr Surg.* 2007;120(6):1519-1523. doi: 10.1097/01.prs.0000282036.04717.1d.

17. Foresta E, Torroni A, Di Nardo F, de Waure C, Poscia A, Gasparini G et al. Pleomorphic adenoma and benign parotid tumors: extracapsular dissection vs superficial parotidectomy--review of literature and meta-analysis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2014;117(6):663-76. doi: 10.1016/j.oooo.2014.02.026.
18. Sood S, McGurk M, Vaz F. Management of Salivary Gland Tumours: United Kingdom National Multidisciplinary Guidelines. *J Laryngol Otol.* 2016;130(S2):S142-S149. doi: 10.1017/S0022215116000566.
19. Wang Y, Xie W, Huang S, Feng M, Ke X, Zhong Z et al. The Diagnostic Value of Ultrasound-Based Deep Learning in Differentiating Parotid Gland Tumors. *J Oncol.* 2022 12;2022:8192999. doi: 10.1155/2022/8192999.
20. Chen H, Bao X, Wan L. Application of Contrast-Enhanced Ultrasound Combined with Elastic Imaging Technology in Differential Diagnosis of Salivary Gland Tumors. *J Healthc Eng.* 2022 12;2022:4600751. doi: 10.1155/2022/4600751.
21. Singh Nanda KD, Mehta A, Nanda J. Fine-needle aspiration cytology: a reliable tool in the diagnosis of salivary gland lesions. *J Oral Pathol Med.* 2012;41(1):106-12. doi: 10.1111/j.1600-0714.2011.01069.x.
22. Marzouki HZ, Altabsh MA, Albakrei MO, Al-Khatib TA, Merdad MA, Farsi NJ. Accuracy of preoperative fine needle aspiration in diagnosis of malignant parotid tumors. *Saudi Med J.* 2017;38(10):1000-1006. doi: 10.15537/smj.2017.10.20988.
23. Altin F, Alimoglu Y, Acikalin RM, Yasar H. Is fine needle aspiration biopsy reliable in the diagnosis of parotid tumors? Comparison of preoperative and postoperative results and the factors affecting accuracy. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2019;85(3):275-281. doi: 10.1016/j.bjorl.2018.04.015.
24. Bova R, Saylor A, Coman WB. Parotidectomy: review of treatment and outcomes. *ANZ J Surg.* 2004;74(7):563-8. doi: 10.1111/j.1445-2197.2004.02988.x.
25. Soler R, Bargiela A, Requejo I, Rodríguez E, Rey JL, Sancristan F. Pictorial review: MR imaging of parotid tumours. *Clin Radiol.* 1997;52(4):269-75. doi: 10.1016/s0009-9260(97)80052-9.
26. Stoia S, Băciuț G, Lenghel M, Badea R, Csutak C, Rusu GM et al. Cross-sectional imaging and cytologic investigations in the preoperative diagnosis of parotid gland tumors - An updated literature review. *Bosn J Basic Med Sci.* 2021;21(1):19-32. doi: 10.17305/bjbm.2020.5028.
27. Zouhair N, Mallouk S. Corrélation entre l'imagerie par résonnance magnétique, l'extemporanéité et l'histologie définitive des tumeurs parotidiennes: série de cas-.. *Pan Afr Med J.* 2020;37:80. doi: 10.11604/pamj.2020.37.80.21192.
28. Iro H, Zenk J. Role of extracapsular dissection in surgical management of benign parotid tumors. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2014;140(8):768-9. doi: 10.1001/jamaoto.2014.1218.
29. Albergotti WG, Nguyen SA, Zenk J, Gillespie MB. Extracapsular dissection for benign parotid tumors: a meta-analysis. *Laryngoscope.* 2012;122(9):1954-60. doi: 10.1002/lary.23396.
30. Zbären P, Vander Poorten V, Witt RL, Woolgar JA, Shaha AR, Triantafyllou A et al. Pleomorphic adenoma of the parotid: formal parotidectomy or limited surgery? *Am J Surg.* 2013;205(1):109-18. doi: 10.1016/j.amjsurg.2012.05.026.
31. Edwards BM, Kileny PR. Intraoperative neurophysiologic monitoring: indications and techniques for common procedures in otolaryngology-head and neck surgery. *Otolaryngol Clin North Am [Internet].* 2005;38(4):631-42, viii.
32. Preuss SF, Guntinas-Lichius O. On the diagnosis and treatment of parotid gland tumors: results of a nationwide survey of ENT hospitals in Germany. *HNO.* 2006;54:868-74.
33. Thölken R, Jering M, Mayer M, Schiele S, Müller G, Zenk J. Prospective study on complications using different techniques for parotidectomy for benign tumors. *Laryngoscope Investig Otolaryngol.* 2021;6(6):1367-1375. doi: 10.1002/lio2.694.
34. Lambiel S, Dulguerov N, Courvoisier DS, Dulguerov P. Minor Parotidectomy Complications: A Systematic Review. *Laryngoscope.* 2021;131(3):571-579. doi: 10.1002/lary.28912.

MAXILLARY SINUS PATHOLOGY AND ITS RELATIONSHIP WITH PATHOLOGY AND DENTAL TREATMENTS. SYSTEMATIC REVIEW

Patología del seno maxilar y su relación con la patología y los tratamientos dentales. Revisión sistemática

María AREIZAGA-MADINA ¹; Beatriz PARDAL-PELÁEZ ²; Javier MONTERO ³

¹DDS, PhD student. University of Salamanca. Salamanca. Spain.

²DDS, PhD. Associate Professor. Faculty of Medicine. Dental Clinic. Department of Surgery. University of Salamanca. Salamanca. Spain.

³DDS, PhD. Lecturer of Stomatological Prosthesis. Faculty of Medicine. Dental Clinic. Department of surgery. University of Salamanca. Salamanca. Spain.

Correspondence: bpardal@usal.es

Reception date: June 13, 2022

Date of Acceptance: July 18, 2022

Publication date: July 20, 2022

Date of publication of the issue: March 24, 2023

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-ND. Creative Commons Attribution-Noncommercial-NoDerivate Works 4.0 International

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

SUMMARY: Introduction and objective: The aim of this review is to evaluate to what extent sinus pathology originates from dental pathology or treatment, and to assess the occurrence frequency of sinus pathology in its different forms using cone beam computed tomography (CBCT). Method: The literature review was conducted using PubMed, Scopus and the Cochrane Library. Forty-two articles were included (25 case series, ten cross-sectional studies, three case-control studies, two cohort studies, one prospective study, and one retrospective study). Results: Forty-two articles involving a total of 13,191 patients and 17,374 CBCTs were included in this review. The most frequent pathological findings were, by a considerable degree, inflammatory diseases, which represented 75.16 % of the total findings, followed by infection (12.13 %), tumours (6.88 %), and high pneumatization (2.07 %). Within dental pathology, there is a direct Pearson correlation with polyps (1) and opacification (0.999), and an almost direct correlation with retention cysts

(0.981) and sinus-associated dental elements (0.972). Conclusions: Our results further support the argument that dental modifications and treatments are an important cause of sinus pathology. For this reason, dental aetiologies must be taken into account by both dentists, maxillofacial surgeons and ENT when considering the most appropriate treatment for patients with maxillary sinusitis.

KEYWORDS: maxillary sinus; pathology; dental care; systematic review.

RESUMEN: Introducción y objetivo: El objetivo de esta revisión fue evaluar en qué medida la patología sinusal se origina a partir de patología o tratamiento dental, y evaluar la frecuencia de aparición de la patología sinusal en sus diferentes formas mediante tomografía computarizada de haz cónico (CBCT). Método: Se realizó una búsqueda bibliográfica utilizando PubMed, Scopus y Cochrane Library. Se incluyeron 42 artículos (25 series de casos, diez estudios transversales, tres estudios de casos y controles, dos estudios de cohortes, un estudio prospectivo y un estudio retrospectivo). Resultados: En esta revisión se incluyeron 42 artículos con un total de 13191 pacientes y 17374 CBCT. Los hallazgos patológicos más frecuentes fueron, en grado considerable, las enfermedades inflamatorias, que representaron el 75,16 % del total de hallazgos, seguida de la infección (12,13 %), los tumores (6,88 %) y la neumatización (2,07 %). Dentro de la patología dental, existe una correlación directa de Pearson con los pólipos (1) y opacificación (0,999), y una correlación casi directa con quistes de retención (0,981) y elementos dentales asociados al seno (0,972). Conclusiones: Los resultados obtenidos respaldan el argumento de que las patologías y tratamientos dentales son una causa importante de patología sinusal. Por este motivo, tanto los odontólogos como los cirujanos maxilofaciales y otorrinolaringólogos deben tener en cuenta las etiologías dentales a la hora de considerar el tratamiento más adecuado para los pacientes con sinusitis maxilar.

PALABRAS CLAVE: seno maxilar; patología; cuidado dental; revisión sistemática.

INTRODUCTION

ANATOMY AND PHYSIOLOGY OF THE MAXILLARY SINUS

The maxillary sinus is a bilateral air cavity that occupies the body of the maxilla. It is internally limited by a thin mucous membrane of ciliated respiratory epithelium that is continuous with the nasal epithelium [1]. The drainage ostium of the maxillary sinus opens to the nose through the infundibulum at the level of the middle meatus. The maxillary sinus is drained as a result of the activity of the cilia and the negative pressure produced in the sinus during inspiration. This cavity has several functions: a respiratory function for heating the air that is breathed in; defence and protection against bacterial and viral invasion; resistance to mechanical shocks; and a vocal function, as it acts as a resonant cavity that supports and amplifies the emission of laryngeal sound [2].

WHAT IS THE RELATIONSHIP BETWEEN THE ANTRAL TEETH AND THE SINUS?

Modifications of the sinus mucosa as a consequence of dental pathology result from the intimate anatomical relationship that some teeth have with the floor of the maxillary sinus [3]. The roots of the posterior maxillary teeth are separated from the sinus by a variable thickness of cortical bone and there are also numerous vascular anastomoses that perforate this space and can serve as channels for the propagation of bacteria, facilitating the spread of odontogenic infections towards the maxillary sinus [4].

The teeth most frequently related to the sinus are the first and second upper molars, followed by the premolars, whose relationship depends on the size of the molar and its degree of pneumatization [5]. Furthermore, these teeth tend to have a high prevalence of periapical lesions compared

to others, particularly those teeth that have been treated endodontically, in addition to a greater susceptibility to periodontal disease due to dental furcation involvement [3, 4]. This explains why 30 % of maxillary sinusitis cases are dental in origin. In addition, maxillary sinusitis is the most frequent complication after invasive dental treatments (up to 27 %), although the diagnostic criteria are not always straightforward [6].

WHICH DENTAL PATHOLOGIES MAY BE RELATED TO SINUS PATHOLOGY?

Sinusitis of dental origin should be considered in patients presenting symptoms of maxillary involvement who have a previous history of dental infection, dentoalveolar surgery, periodontal pathology, endodontics related to antral teeth, sinus elevations, implants, and those cases resistant to conventional treatment [5, 6].

Odontogenic sinus infections tend to have higher microbiological loads with a high predominance of anaerobic microorganisms. Their clinical characteristics are similar to those of non-odontogenic sinusitis, but they are generally unilateral and not necessarily associated with ostium obstructions [3]. The diagnosis of odontogenic sinus pathologies must, therefore, be multidisciplinary, and a clinical assessment must be complemented by other techniques, such as imaging [6].

WHAT TYPES OF IMAGING TESTS CAN BE PERFORMED TO EVALUATE THE SINUS? WHAT IS THE GOLD STANDARD?

X-rays and clinical dental evaluations are unable to detect antral teeth infections that may cause odontogenic sinusitis. Panoramic x-rays are the most typical two-dimensional image projections used by the majority of dentists to make a general evaluation of the orofacial complex, allowing them to determine the size of an apical lesion, visualise cysts, and evaluate the relationship between the teeth and the sinus floor. They do,

however [7], have inherent limitations. In addition, cancellous bone lesions cannot be consistently detected with these radiographic techniques. In the maxilla, the degree the antral roots protrude into the maxillary sinus tends to be overestimated. Another drawback is that the soft tissues of the sinus cannot be viewed effectively [8].

Computed tomography (CT) used to be considered the gold-standard for sinus imaging, although it does have disadvantages when compared to cone beam computed tomography (CBCT), including: greater radiation exposure, and an increased likelihood of generating artifacts when hyperdense materials are present near the area of interest. For this reason, CBCT is now the procedure of choice both for the preoperative evaluation of the maxilla, and to assess sinus health status or pathology [9].

WHICH SINUS DISEASES MAY BE RELATED TO DENTAL PATHOLOGY?

The intimate relationship between the maxillary sinus and the roots of the teeth makes it possible for symptoms originating in the sinus to manifest at the dental level and vice versa. Physiologically, the roots of the teeth are separated from the maxillary sinus by a thin, sometimes non-existent, layer of cortical bone and a mucoperiosteum of variable thickness, which may explain how the sinus inflammation develops [7]. Pathological symptoms of inflammation are common in the maxillary sinus, including mucosal thickening, polypoid lesions, sinus opacification, and hydro-aerial level. The aetiology is varied, it may be secondary to inflammatory and infectious processes, such as periodontal disease, root and dental cysts, endodontic infections, retained teeth, iatrogenic causes, or extractions closely associated with the sinus [10].

Due to the difficulty of differentiating symptoms of dental and sinus origin, a detailed dental history of pathology, symptoms, previous surgeries, treatments, and trauma must be compiled, in addition to radiological studies. Both extraoral and

intraoral examinations and complementary tests are also required to ensure a precise diagnosis [11].

JUSTIFICATION AND OBJECTIVE

Despite the fact that dental pathology is recognised as causing some sinus disorders, there is little literature on how to manage this in the scope of dentistry, as 90 % of the published work comes from the field of otorhinolaryngology [7]. Due to the increase in dental procedures and related diagnostic tests, this percentage may now be rising.

The primary objective of this study was, therefore, to determine how much sinus pathology originates from dental pathology or treatment. The secondary goal was to evaluate the frequency with which sinus disease appears in its various forms, by means of a CBCT study.

To this end, the following PICO question was applied: Patients –patients attending an ear, nose and throat (ENT) or dental assessment–; Interventions – CBCT–; Comparison –sinus pathology of oral origin vs. sinus pathology of non-oral origin–; Outcome –how much dental pathology is related to sinus pathology–. In patients who come for an ENT or dental check-up (Patients), who have a CBCT (Interventions) and who have sinus pathology associated or not with antral teeth (Comparison), is it possible to evaluate how much dental pathology is directly related to sinus pathology (Outcome)?

MATERIAL AND METHODS

ELIGIBILITY CRITERIA

Inclusion criteria. We incorporated the articles in English and Spanish that included the abstract and in which the pathology of the maxillary sinus was studied by means of imaging techniques (CBCT, panoramic x-ray or Waters). We included patients who attended their ENT service for sinus disease as well as those who attended their dental service for dental treatment with or without known dental or sinus disease. Meta-analyses, systematic

reviews, clinical trials, prospective, and retrospective studies were reviewed.

Exclusion criteria. Papers investigating anatomical variations of the maxillary sinus or other paranasal sinuses, as well as systemic pathologies or those involving microbiology of the maxillary sinus were excluded. Articles that did not include radiological studies of the sinus were also excluded. Clinical cases were rejected.

INFORMATION SOURCES AND SEARCH

Three online databases, PubMed, Cochrane Library and Web of Science, were searched extensively without time constraints.

All types of articles were selected except for clinical cases, due to the scarcity of works in this regard, due to the scarcity of papers on the subject. There are no randomized clinical trials, so most of them are observational since they are studies with findings observed in radiology. No screening by type of article or quality criteria was performed, as it was considered that relevant information could be lost.

The complete search strategy is shown below and is specified in the flow chart following the PRISMA criteria [12] (Figure 1). The last bibliographic search was carried out on 25/02/2020.

DIAGRAM DESCRIPTION

The initial search strategy used the following combinations of terms: maxillary sinus AND pathology AND radiology. These terms were adjusted according to the requirements of each electronic database. In the three databases used, 1656 articles were identified. In addition, one study identified via other sources was included [13]. Inclusion and exclusion criteria were applied, and after eliminating duplicates, 48 publications were identified as suitable for inclusion as full texts. After reading this series of publications, 6 articles were excluded for the following reasons: study of specific sinus pathologies [14-18] and due to the absence

MAXILLARY SINUS PATHOLOGY AND ITS RELATIONSHIP WITH PATHOLOGY AND DENTAL TREATMENTS. SYSTEMATIC REVIEW

AREIZAGA-MADINA M, PARDAL-PELÁEZ B AND MONTERO J

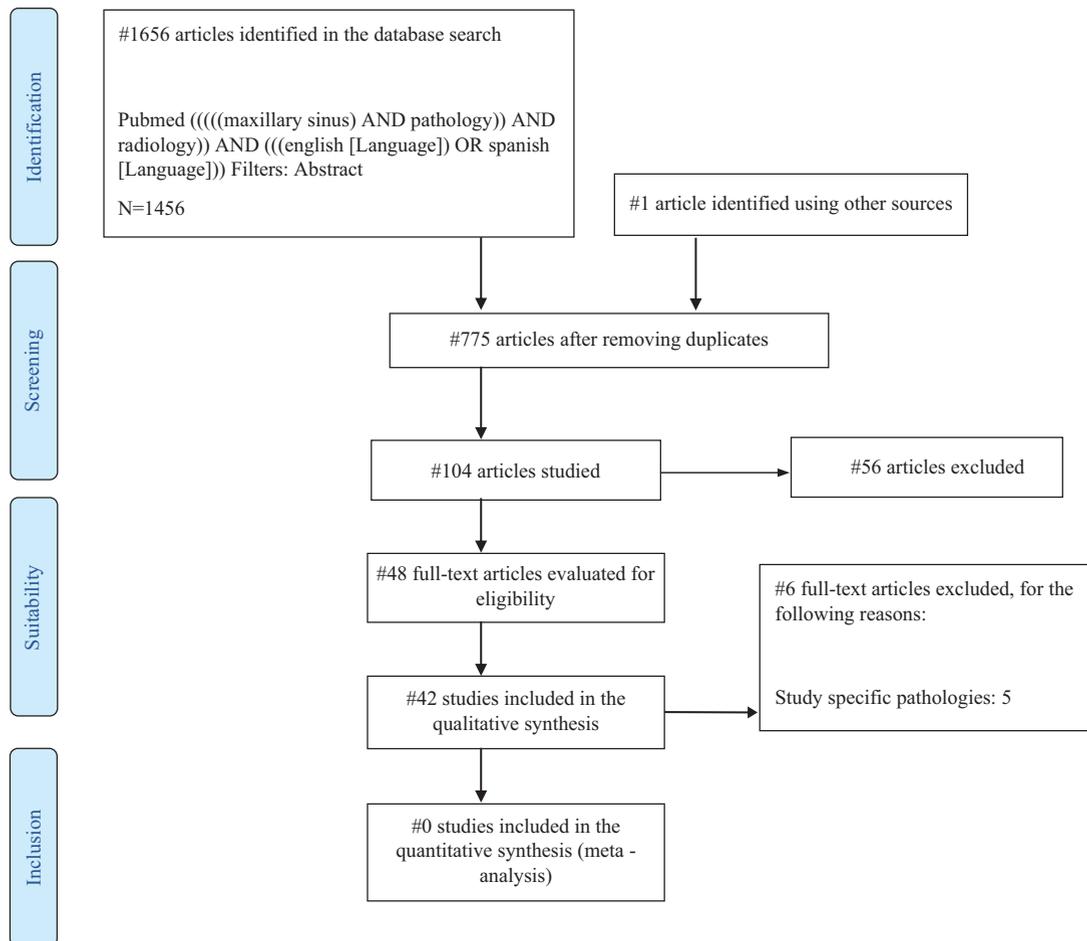


Figure 1. Flowchart of the included studies.

of data in the article and the fact these could not be obtained by contacting the author [19]. Finally, 42 studies were included in the qualitative analysis.

STUDY SELECTION

Data extraction process and data list

The data extracted from each of the studies are detailed below: number of patients, age and sex, diagnostic imaging (CBCT or panoramic x-ray),

and number of maxillary sinuses (pathological and physiological). Sinus findings were collected (mucosal thickening, opacification, mucocele, hypoplasia, silent sinus, retention cyst, malignant and benign tumours, polyps, sinusitis, pneumatization, sinus-associated dental elements, antroliths, fungal infection, ostium obstruction, foreign body, aplasia, and fluid). Dental pathology and general treatments, pre-implant (sinus lift) and post-implant dental treatments were also recorded.

SYNTHESIS OF RESULTS

Of the 42 articles studied, data were extracted on the different sinus pathologies found, as well as the pathology or dental treatment associated with the pathological sinuses. Firstly, a descriptive analysis of the results obtained was carried out in Excel to ascertain the prevalence of the variables mentioned above.

Next, a quantitative parametric inferential analysis was conducted using JAMOVI software (The jamovi Project (2020) jamovi (1.2 version)), by means of the T-student test, as well as various correlations between sinus pathology, pathological sinuses and dental pathology or treatment. To study the correlations, the Pearson linear correlation coefficient was used, which is the most convenient for detecting possible relationships/associations between continuous (numerical) variables. This value can range from -1 to +1, the latter being indicative of a perfect linear relationship; values close to 0 are associated with independence, the null hypothesis in this type of contrast. The results are expressed with their confidence interval with an accuracy of 95 % (CI 0.95), and a standard error of 5 % (0.05).

Due to the high heterogeneity of the data, it was not possible to perform a meta-analysis of the prevalence of sinus pathology related to dental pathology.

RESULTS

STUDY SELECTION AND CHARACTERISTICS

Forty-two articles were selected in which 13,191 patients were examined and 17,374 CBCTs were performed, for dental reasons in 71 % of cases (9,431/13,191) and for ENT purposes in 29 % (3,760/13,191). Of the selected articles, 25 (59.52 %) were case series, 10 (23.82 %) were cross-sectional studies, 3 (7.14 %) case-controls, 2 (4.76 %) cohort studies, 1 (2.34 %) prospective study, and 1 (2.34 %) retrospective study.

Of the 13,191 patients studied, disease was found by chance in 13.05 % (1,721/13,191), while symptoms were present in 34.36 % (4,533/13,191). The other cases were not chance, but it is not specified whether the patients were symptomatic or not in 86.95 % of the cases (11,470/13,191).

RESULTS OF INDIVIDUAL STUDIES

Table 1 (Appendix 1) presents the characteristics of the types of studies included and their duration, detailing the number of pathological or physiological sinuses, as well as pathology and dental treatment.

Figure 2 shows the prevalence of physiological maxillary sinuses 66.26 % (16,918/25,533) and pathological maxillary sinuses 33.74 % (8,615/25,533) with respect to total sinuses studied (25,533).

Figure 3 shows the distribution of sinus findings broken down, the most frequent being mucosal inflammation with 42.70 % followed by mucosal thickening 41.50 % and infection with 10.86 %. Absent sinus findings were high pneumatization, mucocele, silent sinus, aplasia and pneumatization.

Table 2 shows the 17 articles that related dental and sinus pathology. As can be seen, within dental pathology (2,495), periapical inflammatory cysts were found in 54.19 % (1,352/2,495) of cases, followed by periodontal disease/bone loss in 34.91 % (871/2,495).

Figure 4 shows the distribution of sinus findings broken down, the most frequent being mucosal thickening with 60.65 % (6132/10111), followed by sinusitis 11.20 % (1132/10111) and retention cyst and mucocele with 5.46 % (552/10111).

Table 3 shows the number of dental pathologies and treatments found, as well as the sum of these in relation to the number of teeth studied (5,558) in the articles that examined one or more teeth per patient.

MAXILLARY SINUS PATHOLOGY AND ITS RELATIONSHIP WITH PATHOLOGY AND DENTAL TREATMENTS. SYSTEMATIC REVIEW

AREIZAGA-MADINA M, PARDAL-PELÁEZ B AND MONTERO J

PREVALENCE OF PHYSIOLOGICAL AND PATHOLOGICAL MS IN RELATION TO TOTAL No. SINUSES STUDIED

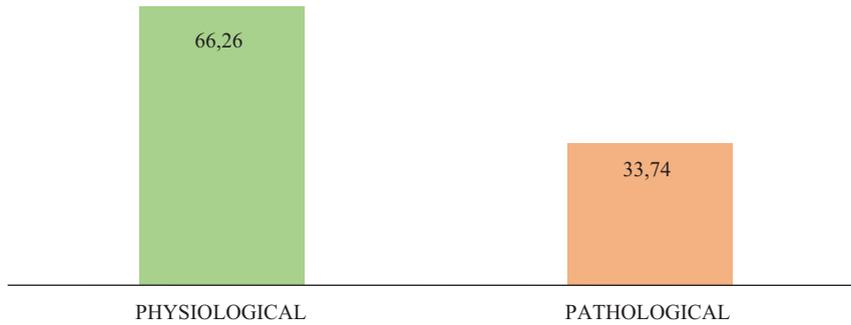


Figure 2. Prevalence of physiological maxillary sinuses and pathological maxillary sinuses with respect to the total number of sinuses studied.

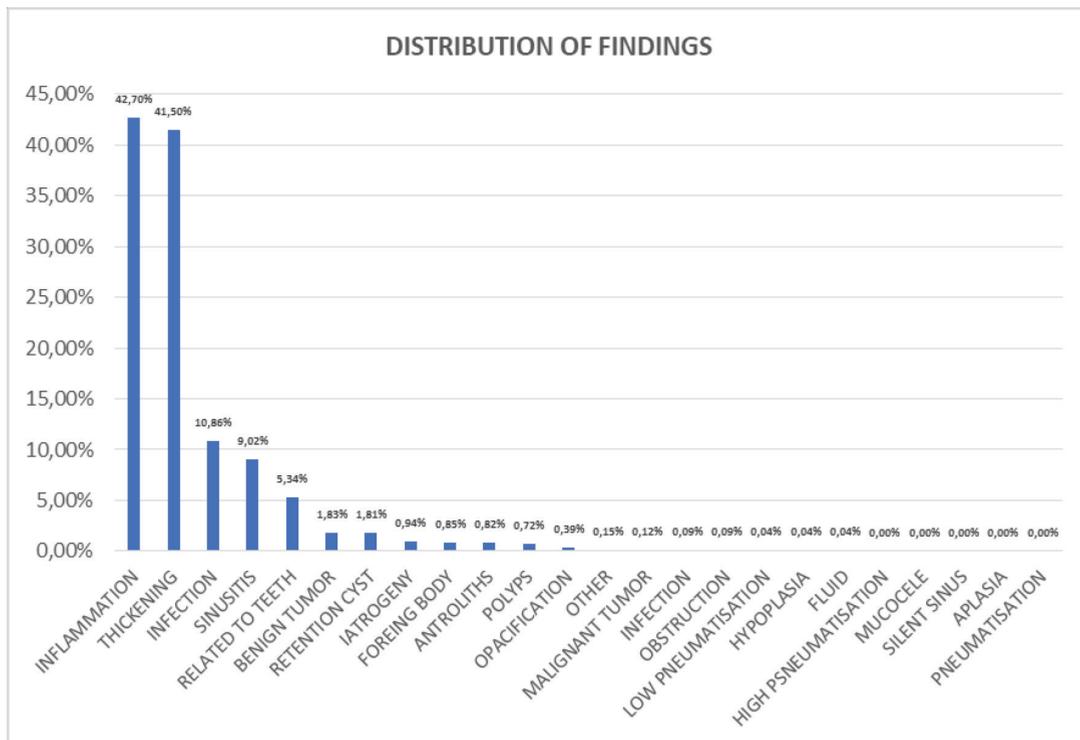


Figure 3. Detailed distribution of sinus findings.

MAXILLARY SINUS PATHOLOGY AND ITS RELATIONSHIP WITH PATHOLOGY AND DENTAL TREATMENTS. SYSTEMATIC REVIEW

AREIZAGA-MADINA M, PARDAL-PELÁEZ B AND MONTERO J

Table 2. Dental pathology associated with the maxillary sinuses studied.

| AUTHOR/YEAR | TOTAL No. SINUSES STUDIED | TOTAL DENTAL PATH | PERIODONTAL DIS./BONE LOSS | PERIAPICAL CYST | DENTAL CARIES | OTHER |
|---------------------------|---------------------------|-------------------|----------------------------|-----------------|---------------|---------|
| Aksoy et al., 2018 | 588 | 224 | No data | 224 | No data | No data |
| Bajoria et al., 2019 | 1,000 | 128 | 60 | 17 | 47 | 4 |
| Bornstein et al., 2018 | 268 | 18 | 10 | 8 | No data | No data |
| Connor et al., 2000 | 330 | 0 | No data | No data | No data | No data |
| Dorothea et al., 2013 | 76 | 17 | 17 | No data | No data | No data |
| Drage et al., 2013 | 584 | 115 | No data | 15 | No data | 100 |
| Goller-Bulut et al., 2015 | 410 | 159 | No data | 159 | No data | No data |
| Horwitz et al., 2017 | 162 | 23 | No data | 23 | No data | No data |
| Kawai et al., 2018 | 338 | 19 | 8 | 11 | No data | No data |
| Maillet et al., 2011 | 164 | 100 | No data | 100 | No data | No data |
| Nascimento et al., 2016 | 766 | 589 | 254 | 335 | No data | No data |
| Nunes et al., 2015 | 321 | 92 | No data | 92 | No data | No data |
| Phothikhun et al., 2012 | 500 | 539 | 500 | 39 | No data | No data |
| Pokorny et al., 2013 | 33 | 24 | 9 | 15 | No data | No data |
| Tassoker et al., 2019 | 400 | 141 | No data | 141 | No data | No data |
| Terlemez et al., 2019 | 570 | 157 | No data | 157 | No data | No data |
| Troeltzsch et al., 2015 | 174 | 150 | 13 | 16 | No data | 121 |
| TOTAL | 6,684 | 2,495 | 871 | 1,352 | 47 | 225 |

SYNTHESIS OF RESULTS

The general correlations between the different sinus pathologies with the number of maxillary sinuses, pathological sinuses and dental pathology are described below. The H0 established shows that there is no relationship between the previously mentioned variables, while the Ha indicates the existence of a relationship between them. For the total number of maxillary sinuses with clustered findings, using Pearson's linear correlation coefficient it can be seen that there is a practically direct association with inflammation (0.992), tumours (0.973), infection (0.951), and low pneumatization (0.814). Among the inflammatory findings, mucosal thickening (0.988), opacification (0.975),

and retention cyst (0.960) stand out. The number of pathological maxillary sinuses shows practically the same degree of high linear correlation as described above. Within dental pathology, direct correlation is observed with polyps (1) and opacification (0.999) and there is practically a direct correlation with retention cyst (0.981) and with sinus-associated dental elements (0.972). From the data available, we observed a significant positive relationship between inflammatory cases (0.526) and benign tumours (0.598). Furthermore, there is little inverse relationship between infectious findings (-0.064) and antroliths (-0.273).

Table 4 (Appendix 2) presents the sinus findings grouped into subgroups; inflammation

MAXILLARY SINUS PATHOLOGY AND ITS RELATIONSHIP WITH PATHOLOGY AND DENTAL TREATMENTS. SYSTEMATIC REVIEW

AREIZAGA-MADINA M, PARDAL-PELÁEZ B AND MONTERO J

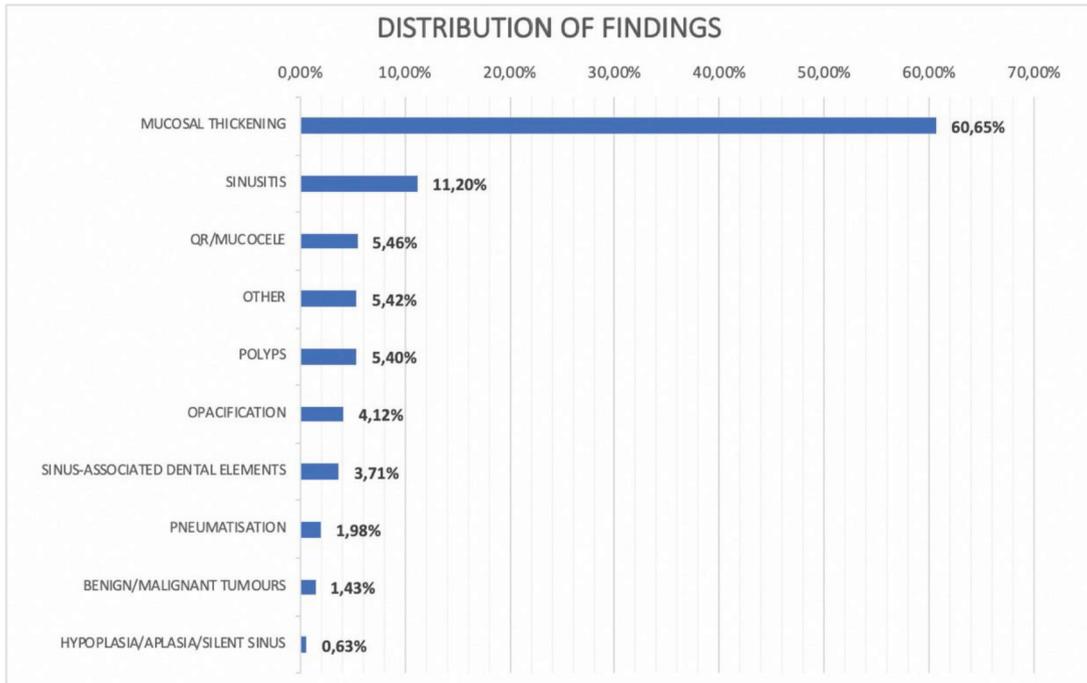


Figure 4. Distribution of sinus findings with respect to maxillary sinuses presenting dental pathology.

Table 3. Relationship between number of teeth with pathology and dental treatment.

| AUTHOR | DENTAL PATHOLOGY | DENTAL TMT | SUM DP-DT | No. TEETH (relation to the pathology, dental tmt) |
|---------------------------|------------------|------------|-----------|---|
| Aksoy et al., 2018 | 224 | 143 | 367 | 1,720 |
| Bajoria et al., 2019 | 132 | 197 | 329 | No data |
| Bornstein et al., 2018 | 18 | 3 | 21 | 25 |
| Connor et al., 2000 | 0 | 192 | 192 | No data |
| Dorothea et al., 2013 | 17 | No data | 17 | No data |
| Drage et al., 2013 | 120 | No data | 120 | No data |
| Goller-Bulut et al., 2015 | 159 | No data | 159 | 1,169 |
| Horwitz et al., 2017 | 23 | No data | 23 | No data |
| Kawai et al., 2018 | 19 | 12 | 31 | No data |
| Maillet et al., 2011 | 100 | 21 | 121 | 534 |
| Nascimento et al., 2016 | 580 | 234 | 814 | No data |

(continued)

MAXILLARY SINUS PATHOLOGY AND ITS RELATIONSHIP WITH PATHOLOGY AND DENTAL TREATMENTS. SYSTEMATIC REVIEW

AREIZAGA-MADINA M, PARDAL-PELÁEZ B AND MONTERO J

Table 3. Relationship between number of teeth with pathology and dental treatment (*continued*)

| | | | | |
|--|-------|---------|-------|---------|
| Nunes et al., 2015 | 92 | No data | 92 | No data |
| Phothikhun et al., 2012 | 539 | 21 | 560 | No data |
| Pokorny et al., 2013 | 24 | No data | 24 | No data |
| Tassoker et al., 2019 | 141 | No data | 141 | 400 |
| Terlemez et al., 2019 | 157 | 112 | 269 | 1,710 |
| Troeltsch et al., 2015 | 150 | 150 | 300 | No data |
| TOTAL | 2,495 | 1,085 | 3,580 | 5,558 |
| Dental tmt; Dental treatment, Sum DP-DT; Sum of pathology and dental treatment | | | | |

included mucosal thickening, opacification, ostium obstruction, mucocele, and polyps. We also included sinusitis and fungal infection in the infection findings. Tumours were subsequently grouped into malignant, benign, and retention cyst. Low pneumatization included silent sinus, hypoplasia and aplasia, while high pneumatization included the data related to pneumatization. The foreign body group included foreign bodies and antroliths. Finally, symptoms and iatrogeny were grouped together.

DISCUSSION

SUMMARY OF THE EVIDENCE

Maxillary sinusitis is a pathology that, although traditionally viewed as falling within the field of otolaryngology, often involves the participation of dentists, in both diagnosis and prevention [7]. Some researchers have studied the frequency of odontogenic maxillary sinusitis and have presented various treatment methods. However, the information available from a dental perspective is limited, and it is likely that the information in the literature on the incidence of maxillary sinusitis of dental origin is an underestimate [20].

Forty-two articles were included in this review (25 case series [21-45], 10 cross-sectional studies

[13, 46-54], 3 case-control studies [55-57], 2 cohort studies [58-59], 1 prospective study [60], and 1 retrospective study [61]). It involved a total of 13191 patients and 17374 CBCTs. The most frequent pathological findings were, by a considerable degree, inflammatory diseases, which represented 75.16 % of the total findings, followed by infection (12.13 %), tumours (6.88 %), and high pneumatization (2.07 %). Finally, iatrogenic findings, the presence of a foreign body, low pneumatization and symptoms occurred with a frequency of less than 2 %.

For inflammation, the most frequent finding was the thickening of the mucosa of the maxillary sinus (60.65 %). Of the 42 studies included in this review, 33 found mucosal thickening, with a mean frequency of 69.34 % (range 13.04-100.00 %). In 500 subjects undergoing CBCT tests, Almeida Da Silva et al. [46] observed that most pathological findings were classified as mucosal thickening, representing almost 80 % of the sinus pathology encountered. Connor et al. [41] reviewed 330 CT images of the maxillary sinus in 165 patients to determine whether the presence of dental restoration might predispose to maxillary sinusitis and, in particular, to focal thickening of the maxillary sinus mucosa as a characteristic of dental origin. They found that focal thickening of the sinus mucosa, with or without evidence of rhinogenic aetiology,

occurred significantly more frequently in the sinus adjacent to dental restoration. However, the incidence of general pathology in the adjacent maxillary sinus was not significantly different from that in the sinus not adjacent to the dental restoration. These findings suggest a relationship between focal thickening of the maxillary sinus mucosa and the presence of dental restoration, which is likely to be due to an associated dental pathology. For that reason, dental restoration should be identified through a clinical exam and a CT scan, as it is a potential aetiological factor for sinusitis of dental origin. This study found a 37.5 % prevalence of mucosal thickening on CBCT images [46]. Similar results were also observed by Ritter et al. who reported a 38.1 % prevalence of mucosal thickening in a CBCT imaging study of 1029 patients [53].

Of the 42 studies analysed here, 17 related maxillary sinus pathology to dental conditions and, specifically, 7 studies [21, 26, 29, 41, 49, 56, 59] found an association between mucosal thickening of the maxillary sinus and dental modifications.

Aksoy et al. [21] retrospectively evaluated the thickening of the maxillary sinus mucosa and its relationship with dental conditions using CBCT imaging in a total of 294 patients and involving 588 maxillary sinuses. In 172 patients (58.5 %) they found mucosal thickening of more than 2 mm, which was considered the pathological threshold, in one or both maxillary sinuses. In addition, the prevalence of pathological mucosal thickening for maxillary sinuses with and without periapical lesions was 42.1 % and 53.6 %, respectively ($p < 0.05$), and this increased significantly ($p < 0.05$) in patients with alveolar bone loss. On this basis, they concluded that multiple conditions, including periapical infections, endodontics, and the close relationship of the maxillary teeth with the sinuses, may have a precursor effect on the appearance of maxillary sinus mucosa thickening. Consequently, the periodontal status and its role as a risk factor for triggering sinus infections should be considered not only by dentists, but also by

medical professionals to establish the treatment of maxillary sinus injuries.

Connor et al. [41] reviewed 330 CT images of the maxillary sinus in 165 patients to determine whether the presence of dental restoration might predispose to maxillary sinusitis and, in particular, to focal thickening of the maxillary sinus mucosa as a characteristic of dental origin. They found that this thickening of the sinus mucosa, with or without evidence of rhinogenic aetiology, occurred significantly more frequently in the sinus adjacent to dental restoration. However, the incidence of general pathology in the adjacent maxillary sinus was not significantly different from that in the sinus not adjacent to the dental restoration. These findings suggest a relationship between localised thickening of the maxillary sinus mucosa and the presence of dental restoration, which is likely to be due to an associated dental pathology. For that reason, dental restoration should be identified through a clinical exam and a CT scan, as it is a potential aetiological factor for sinusitis of dental origin.

Nascimento et al. [26] evaluated the most common types of maxillary sinus disorder (generalised and localised mucosal thickening, maxillary sinusitis, and retention cysts) and their association with dental conditions (inadequate endodontic treatment, periapical lesions and periodontal bone loss) in CBCT images of 400 patients with disease in one or both maxillary sinuses. The most prevalent sinus pathologies were generalised (65.2 %) and localised (24.8 %) mucosal thickening, which were also the only ones related to dental conditions (periodontal bone loss and periapical lesions, respectively).

The case series study by Dagassan-Berndt et al. [56], based on CBCT images, looked at the presence of maxillary sinus mucosa thickening in two groups of patients with advanced dental pathology: 17 patients scheduled for maxillary molar surgery who underwent a CBCT for preoperative diagnosis (dentate group) and 21 patients who required a

CBCT for the insertion of an implant in the posterior maxilla and who served as controls (edentulous group). The thickness of the sinus mucosa was significantly greater in the dentate group than in the edentulous group, both in the first molar position ($p=0.028$) and in the second ($p<0.001$). In addition, periapical lesions ($p=0.008$) and the distance between the tooth apices and the maxillary sinus ($p=0.036$) was significantly associated with the thickness of the maxillary sinus membrane.

In our review, the dental modifications that were most frequently related to sinus pathology were periapical inflammatory cysts (54.19 %) and periodontal bone loss (34.91 %). Other systematic reviews and meta-analyses [7] have also investigated the aetiologies of maxillary sinusitis and its relationship with dental pathology, with mixed results.

Furthermore, the review by Terlemez et al. [59] described the fact that anatomically associated periapical lesions of the maxillary sinus, seen on CBCT images, were a risk factor (OR: 2.7; $p<0.05$) for mucosa thickening. (59) The retrospective study by Goller- Bulut et al. [49] looked at the relationship between maxillary sinus mucosa thickness and periodontal bone loss with related periapical tooth conditions, as well as the association between the tooth apices and the lower wall of the maxillary sinus, in CBCT images of 250 patients, involving 410 maxillary sinuses. They found a significant correlation between mucosal thickness and the severity of bone loss and apical lesions. Phothikhun et al. [29] also observed an association between the severity of periodontal bone loss, as assessed by CBCT, and mucosal thickening of the maxillary sinus (OR: 3.02; $p<0.001$), but no association was found with periapical lesions. This is consistent with the results of our review which revealed mucosal thickening to be the most frequent disease (60.65 %) in the studies analysed, while retention cysts and opacification accounted for only 5.46 % and 4.12 % of the total findings, respectively.

Arias-Irimia et al. [7] found iatrogeny to be the most frequent cause (55.97 %) of odontogenic

maxillary sinusitis. Other possible aetiologies were periodontitis (40.38 %) and odontogenic cysts (6.66 %). The most prevalent iatrogenic causes were oroantral fistulas and root remains, taken together as iatrogeny after dental extraction, which accounted for 47.56 %, while dressings for closing these oroantral fistulas and non-specific foreign bodies constituted 19.72 %, and extrusion of filling materials for endodontics in the maxillary sinus represented 22.27 %. These results are not in line with the findings of our review, which showed that iatrogenic findings were very rare, making up only 1.78 % of the total number of pathological findings observed.

Pearson's correlation analysis of the number of pathological maxillary sinuses revealed very high and significant associations with inflammation ($r=0.992$, $p<0.001$), tumour ($r=0.976$, $p<0.001$), infection ($r=0.949$, $p<0.001$), and low pneumatization ($r=0.879$, $p=0.021$). In the case of inflammation, the most important correlations were with mucosal thickening ($r=0.898$, $p<0.001$), opacification ($r=0.978$, $p<0.001$), and retention cysts ($r=0.971$, $p<0.001$). For dental pathology, direct correlations were observed with polyps ($r=1.000$; $p=0.007$), and opacification ($r=0.999$; $p<0.00$), and practically direct correlations were seen with retention cysts (0.981; $p<0.00$) and sinus-associated dental elements ($r=0.972$; $p=0.006$). Finally, when we analysed the correlations between sinus pathology and the sum of pathology and dental treatment, we observed a positive and significant association with inflammatory findings ($r=0.526$; $p=0.044$) and, specifically, with sinus mucosa thickening ($r=0.536$; $p=0.040$). In contrast, the other pathological findings showed no association with dental pathology and/or treatment.

In summary, the results of this review demonstrate remarkable evidence for a relationship between maxillary sinus pathology and, particularly, sinus mucosa thickening and the presence of dental modifications in CBCT images. However, although most studies describe an association

between sinus pathology and dental pathology, the most frequently observed dental aetiologies are inconsistent. Finally, we found that the presence of an inflammatory sinus pathology, and specifically the thickening of the mucosa of the maxillary sinus, correlates positively and significantly with dental pathology and/or treatment.

LIMITATIONS

The aim of this study was to review the data available in the literature on odontogenic maxillary sinus pathology. The results highlight the importance of dental modifications, observed by means of CBCT, as a frequent cause of maxillary sinusitis, offering a new perspective on the pathology of the maxillary sinus. However, the study has a number of limitations.

Selection bias is one of the most important aspects to be addressed in a review article. For this review, we selected studies that included CBCT images of otolaryngology patients with maxillary sinusitis and dental patients with or without dental and/or sinus pathology. One limitation is the existence of possible confounding factors resulting from the heterogeneous characteristics of the patients.

Other limitations are linked to the very nature of the case series, cross-sectional and case-control studies, which have inherent bias in their retrospective design. In addition, we did not assess the methodological quality of the selected studies.

Finally, due to the heterogeneity of the data collected from the included studies, it was not possible to perform a meta-analysis on the prevalence of odontogenic maxillary sinusitis.

CONCLUSIONS

The incidence of sinusitis of dental origin is probably underestimated in the available literature. The most recent studies suggest a much higher incidence, close to 30-40 % of all cases of

chronic maxillary sinusitis. Inflammatory processes and, in particular, the thickening of the mucosa of the maxillary sinus are frequently related to the presence of dental modifications observed in CBCT images, either due to pathologies or complications after dental treatment. However, given the heterogeneity of the studies included in this review, it was not possible to estimate the prevalence of maxillary sinusitis originating from dental pathologies and/or treatments.

Inflammatory-type alterations of the maxillary sinus account for approximately three thirds of all pathological findings observed on CBCT images. We also identified infections, tumours and the presence of high pneumatization in the maxillary sinus, although at a lower frequency. In contrast, other possible causes of sinus pathology, such as iatrogeny, the presence of foreign bodies, and low pneumatization are very rare in the work included in this review. The majority of the studies agree on an association between maxillary sinus pathology and dental pathology, but diverge in terms of the dental causes most commonly observed in patients with maxillary sinusitis. The dental disorders most frequently associated with sinus pathology are periapical inflammatory cysts and periodontal bone loss.

In conclusion, our results further support the argument that dental modifications and treatments are an important cause of sinus pathology. For this reason, dental aetiologies must be taken into account by both dentists and maxillofacial surgeons when considering the most appropriate treatment for patients with maxillary sinusitis.

REFERENCES

1. Kim H-J, Yoon H-R, Kim K-D, Kang M-K, Kwak H-H, Park H-D, et al. Personal- computer-based three-dimensional reconstruction and simulation of maxillary sinus. *Surg Radiol Anat.* 2003;24(6):393-9
2. Delgado Ávila JR. Growth and development of the maxillary sinus and its relation with the dental roots. *Kiru.* 2005;2(1):46-51.

3. Patel NA, Ferguson BJ. Odontogenic sinusitis: An ancient but under-appreciated cause of maxillary sinusitis. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;20(1):24–8.
4. Heider C-C, Ribalta L-G, Bacigalupe R-D, Krauss M-K. Rinosinusitis maxilar crónica de origen dental. *Rev Otorrinolaringol y cirugía cabeza y cuello.* 2014;74(1):12–20.
5. Kretzschmar DP, Kretzschmar CJL. Rhinosinusitis: Review from a dental perspective. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2003;96(2):128–35.
6. Pardal-Peláez B, Pardal-Refoyo JL, Montero J, González-Serrano J, López-Quiles J. Classification of sinonasal pathology associated with dental pathology or dental treatment. *Minerva Dent Oral Sci.* 2021;70(2):71–77.
7. Arias-Irimia O, Barona-Dorado C, Santos-Marino JA, Martínez-Rodríguez N, Martínez-González JM. Meta-analysis of the etiology of odontogenic maxillary sinusitis. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2010;15(1):3–6.
8. Shiki K, Tanaka T, Kito S, Wakasugi-Sato N, Matsumoto-Takeda S, Oda M, et al. The significance of cone beam computed tomography for the visualization of anatomical variations and lesions in the maxillary sinus for patients hoping to have dental implant-supported maxillary restorations in a private dental office in Japan. *Head Face Med.* 2014;10(1):1–13.
9. Guijarro-Martínez R, Swennen GRJ. Cone-beam computerized tomography imaging and analysis of the upper airway: A systematic review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2011;40(11):1227–37.
10. Little RE, Long CM, Loehrl TA, Poetker DM. Odontogenic sinusitis: A review of the current literature. *Laryngoscope Investig Otolaryngol.* 2018;3(2):110–4.
11. Cabezón A R, Vaidés S R, Breinbauer K H, Ramírez R C, Grau L C, Iñíguez CR. Variantes anatómicas relevantes en tomografía computarizada de cavidades perinasales. *Rev Otorrinolaringol y cirugía cabeza y cuello.* 2010;70(3):223–30.
12. Moher D, Liberati A, Tetzlaff J, Altman DG, Altman D, Antes G, et al. Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: The PRISMA statement. *PLoS Med.* 2009;6(7):e1000097.
13. Gutiérrez Mesa M, León-Manco RA, Ruiz García VE. Frecuencia de patología de los senos maxilares evaluados mediante tomografía computarizada de haz cónico. *Rev Estomatológica Hered.* 2018;28(3):177.
14. Nair S. Correlation between symptoms and radiological findings in patients of chronic rhinosinusitis: A modified radiological typing system. *Rhinology.* 2009;47(2):181–6.
15. Tezer MS, Tahamiller R, Çanakçıoğlu S. Computed tomography findings in chronic rhinosinusitis patients with and without allergy. *Asian Pacific J Allergy Immunol.* 2006;24(2–3):123–7.
16. Rose GE, Sandy C, Hallberg L, Moseley I. Clinical and radiologic characteristics of the imploding antrum, or “silent sinus,” syndrome. *Ophthalmology.* 2003;110(4):811–8.
17. Rózyło-Kalinowska I. Imaging diagnostics strategy in maxillary sinus neoplasms. *Ann Univ Mariae Curie-Skłodowska Sect D Med.* 2001;56(6):423–9.
18. Krennmaier G, Lenglinger F. Maxillary sinus aspergillosis. *J Oral Maxillofac Surg.* 1995;53(6):657–63.
19. Guerra-Pereira I, Vaz P, Faria-Almeida R, Braga AC, Felino A. CT maxillary sinus evaluation—a retrospective cohort study. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2015;20(4):e419–26.
20. Costa F, Emanuelli E, Robiony M. Incidence of maxillary sinus disease before sinus floor elevation surgery as identified by cone-beam computed tomography: A literature review. *J Oral Implantol.* 2018;44(2):161–6.
21. Aksoy U. Association between odontogenic conditions and maxillary sinus mucosal thickening: a retrospective CBCT study. *Clin Oral Investig.* 2019;23(1):123–31.
22. Avsever H, Gunduz K, Karakoç O, Akyol M, Orhan K. Incidental findings on cone-beam computed tomographic images: paranasal sinus findings and nasal septum variations. *Oral Radiol.* 2018;34(1):40–8.
23. Kalavagunta S, Reddy KTV. Extensive maxillary sinus pneumatization. *Rhinology.* 2003;41(2):113–7.

24. Kawai T, Tanaka R, Yeung AWK, von Arx T, Bornstein MM. Frequency and type of incidentally detected radiodensities in the maxillary sinus: a retrospective analysis using cone beam computed tomography (CBCT). *Clin Oral Investig.* 2019;23(3):1091–9.
25. Maillet M, Bowles WR, McClanahan SL, John MT, Ahmad M. Cone-beam computed tomography evaluation of maxillary sinusitis. *J Endod.* 2011;37(6):753–7.
26. Nascimento EHL, Pontual MLA, Pontual AA, Freitas DQ, Perez DEC, Ramos-Perez FMM. Association between Odontogenic Conditions and Maxillary Sinus Disease: A Study Using Cone-beam Computed Tomography. *J Endod.* 2016;42(10):1509–15.
27. Nunes CABCM, Guedes OA, Alencar AHG, Peters OA, Estrela CRA, Estrela C. Evaluation of Periapical Lesions and Their Association with Maxillary Sinus Abnormalities on Cone-beam Computed Tomographic Images. *J Endod.* 2016;42(1):42–6.
28. Pazera P, Bornstein MM, Pazera A, Sendi P, Katsaros C. Incidental maxillary sinus findings in orthodontic patients: A radiographic analysis using cone-beam computed tomography (CBCT). *Orthod Craniofacial Res.* 2011;14(1):17–24.
29. Phothikhun S, Suphanantach S, Chuenchompoonut V, Nisapakultorn K. Cone-Beam Computed Tomographic Evidence of the Association Between Periodontal Bone Loss and Mucosal Thickening of the Maxillary Sinus. *J Periodontol.* 2012;83(5):557–64.
30. Pokorny A, Tataryn R. Clinical and radiologic findings in a case series of maxillary sinusitis of dental origin. *Int Forum Allergy Rhinol.* 2013;3(12):973–9.
31. Roque-Torres GD, Meneses-López A, Bóscolo N, De Almeida SM, Neto FH. *Ene-Mar; Rev Estomatol Herediana.* 2015;25(1):60–77
32. Rudralingam M, Jones K, Woolford TJ. The unilateral opaque maxillary sinus on computed tomography. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2002;40(6):504–7.
33. Bajoria AA, Sarkar S, Sinha P. Evaluation of Odontogenic Maxillary Sinusitis with Cone Beam Computed Tomography: A Retrospective Study with Review of Literature. *J Int Soc Prev Community Dent.* 2019;9(2):194–204.
34. Selcuk A, Ozcan KM, Akdogan O, Bilal N, Dere H. Variations of maxillary sinus and accompanying anatomical and pathological structures. *J Craniofac Surg.* 2008;19(1):159–64.
35. Tassoker M. What are the risk factors for maxillary sinus pathologies? A CBCT study. *Oral Radiol.* 2020;36(1):80–4.
36. Troeltzsch M, Pache C, Troeltzsch M, Kaeppler G, Ehrenfeld M, Otto S, et al. Etiology and clinical characteristics of symptomatic unilateral maxillary sinusitis: A review of 174 cases. *J Cranio-Maxillofacial Surg.* 2015;43(8):1522–9.
37. Lawson W, Patel ZM, Lin FY. The development and pathologic processes that influence maxillary sinus pneumatization. *Anat Rec.* 2008;291(11):1554–63.
38. Yalcin ED, Akyol S. Relationship Between the Posterior Superior Alveolar Artery and Maxillary Sinus Pathology: A Cone-Beam Computed Tomography Study. *J Oral Maxillofac Surg.* 2019;77(12):2494–502.
39. Bornstein M, Yeung A, Tanaka R, von Arx T, Jacobs R, Khong P-L. Evaluation of Health or Pathology of Bilateral Maxillary Sinuses in Patients Referred for Cone Beam Computed Tomography Using a Low-Dose Protocol. *Int J Periodontics Restorative Dent.* 2018;38(5):699–710.
40. Chen HJ, Chen H Sen, Chang YL, Huang YC. Complete unilateral maxillary sinus opacity in computed tomography. *J Formos Med Assoc.* 2010;109(10):709–15.
41. Connor SEJ, Chavda S V., Pahor AL. Computed tomography evidence of dental restoration as aetiological factor for maxillary sinusitis. *J Laryngol Otol.* 2000;114(7):510–3.
42. Dobe I, Kise L, Apse P, Kragis G, Bigestans A. Radiographic assessment of findings in the maxillary sinus using cone-beam computed tomography. *Stomatologija.* 2013;15(4):119–22.
43. Drăgan E, Rusa O, Nemțoi A, Melian G, Mihai C, Haba D. Maxillary sinus anatomic and pathologic CT findings in edentulous patients scheduled for

- sinus augmentation. *Rev medico-chirurgicală a Soc Medici și Nat din Iași*. 2014;118(4):1114–21.
44. Drage N, Rogers S, Greenall C, Playle R. Incidental findings on cone beam computed tomography in orthodontic patients. *J Orthod*. 2013;40(1):29–37.
 45. Horwitz Berkun R, Polak D, Shapira L, Eliashar R. Association of dental and maxillary sinus pathologies with ear, nose, and throat symptoms. *Oral Dis*. 2018;24(4):650–656.
 46. Da Silva AF, Fróes GR Jr, Takeshita WM, Da Fonte JB, De Melo MF, Sousa Melo SL. Prevalence of pathologic findings in the floor of the maxillary sinuses on cone beam computed tomography images. *Gen Dent*. 2017;65(2):28–32.
 47. Ani CC, Adoga AA, Tawe GS. Incidental maxillary sinus findings on cranial computerized tomographic scan in a tropical setting. *J West African Coll Surg*. 2016;6(2):39–51.
 48. Cavalcanti MC, Guirado TE, Sapata VM, et al. Maxillary sinus floor pneumatization and alveolar ridge resorption after tooth loss: a cross-sectional study. *Braz Oral Res*. 2018;32:e64.
 49. Goller-Bulut D, Sekerci AE, Köse E, Sisman Y. Cone beam computed tomographic analysis of maxillary premolars and molars to detect the relationship between periapical and marginal bone loss and mucosal thickness of maxillary sinus. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2015;20(5):e572–9.
 50. Hsiao YJ, Yang J, Resnik RR, Suzuki JB. Prevalence of Maxillary Sinus Pathology Based on Cone-Beam Computed Tomography Evaluation of Multiethnicity Dental School Population. *Implant Dent*. 2019;28(4):356–66.
 51. Manji A, Faucher J, Resnik RR, Suzuki JB. Prevalence of maxillary sinus pathology in patients considered for sinus augmentation procedures for dental implants. *Implant Dent*. 2013;22(4):428–35.
 52. Raghav M, Karjodkar FR, Sontakke S, Sansare K. Prevalence of incidental maxillary sinus pathologies in dental patients on cone-beam computed tomographic images. *Contemp Clin Dent*. 2014;5(3):361–5.
 53. Ritter L, Lutz J, Neugebauer J, Scheer M, Dreiseidler T, Zinser MJ, et al. Prevalence of pathologic findings in the maxillary sinus in cone-beam computerized tomography. *Oral Surgery, Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endodontology [Internet]*. 2011;111(5):634–40.
 54. Tadinada A, Jalali E, Al-Salman W, Jambhekar S, Katechia B, Almas K. Prevalence of bony septa, antral pathology, and dimensions of the maxillary sinus from a sinus augmentation perspective: A retrospective cone-beam computed tomography study. *Imaging Sci Dent*. 2016;46(2):109–15.
 55. Dedeoğlu N, Altun O. Evaluation of maxillary sinus anatomical variations and pathologies in elderly, young, posterior dentate and edentulous patient groups with cone-beam computed tomography. *Folia Morphol*. 2019;78(3):595–9.
 56. Dagassan-Berndt DC, Zitzmann NU, Lambrecht JT, Weiger R, Walter C. Is the Schneiderian membrane thickness affected by periodontal disease? A cone beam computed tomography-based extended case series. *J Int Acad Periodontol*. 2013;15(3):75–82.
 57. Yeung AWK, Tanaka R, Khong PL, von Arx T, Bornstein MM. Frequency, location, and association with dental pathology of mucous retention cysts in the maxillary sinus. A radiographic study using cone beam computed tomography (CBCT). *Clin Oral Investig*. 2018;22(3):1175–83.
 58. Constantine S, Clark B, Kiermeier A, Anderson PP. Panoramic radiography is of limited value in the evaluation of maxillary sinus disease. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2019;127(3):237–246.
 59. Terlemez A, Tassoker M, Kizilcakaya M, Gulec M. Comparison of cone-beam computed tomography and panoramic radiography in the evaluation of maxillary sinus pathology related to maxillary posterior teeth: Do apical lesions increase the risk of maxillary sinus pathology? *Imaging Sci Dent*. 2019;49(2):115–22.
 60. Kaplan BA, Kountakis SE. Diagnosis and pathology of unilateral maxillary sinus opacification with or without evidence of contralateral disease. *Laryngoscope*. 2004;114(6):981–5.
 61. Taher MM, Haddad OS. CT scan findings of occult sinus pathology in asymptomatic individuals. *Ann Saudi Med*. 1992;12(5):456–458.

APPENDIX 1

Table 1. Counts and general characteristics included in the articles.

| Author/year | Type of study | Period of study | Average age | No. Patients M/f | No. Maxillary sinuses | No. Physiological sinuses | No. Pathological sinuses | Dental pathology | Dental treatment |
|-----------------------------|-----------------|-----------------|-------------|------------------|-----------------------|---------------------------|--------------------------|------------------|------------------|
| Aksoy et al., 2018 | Case series | 2012-2016 | 46.7 | 151M/143F | 588 | 323 | 265 | 224 | 143 |
| Almeida et al., 2015 | Cross-sectional | 2009-2011 | 52 | 194M/306F | 1,000 | 517 | 483 | No data | No data |
| Ani et al., 2016 | Cross-sectional | 2015-2015 | 47.5 | 72M/49F | 242 | 196 | 46 | No data | No data |
| Avsever et al., 2017 | Case series | 2011-2015 | 45 | 423M/268F | 1,382 | 690 | 692 | No data | No data |
| Bajoria et al., 2019 | Case series | 2017-2018 | 40 | 314M/186F | 1,000 | 606 | 394 | 132 | 197 |
| Bornstein et al., 2018 | Case series | 2016-2016 | 32 | 43M/91F | 268 | 169 | 99 | 18 | 3 |
| Cavalcanti et al., 2018 | Cross-sectional | No data | 47.4 | 74M/109F | 366 | 323 | 43 | No data | No data |
| Chen et al., 2010 | Case series | 2004-2008 | 48.1 | 60M/56F | 232 | 116 | 116 | No data | No data |
| Connor et al., 2000 | Case series | 1993-1998 | 44.75 | 162M/158F | 330 | 104 | 226 | No data | 192 |
| Constantine et al., 2018 | Cohort | No data | 52.85 | 312M/402F | 1,322 | 249 | 1,073 | No data | No data |
| Dedeoğlu et al., 2019 | Case-control | 2011-2017 | 45.17 | 66M/74F | 258 | 150 | 108 | No data | No data |
| Dobele et al., 2013 | Case series | No data | 52.53 | 18M/16F | 68 | 35 | 33 | No data | No data |
| Dorothea et al., 2013 | Case-control | 2007-2010 | 62.2 | 19M/19F | 76 | 0 | 76 | 17 | No data |
| Drăgan et al., 2014 | Case series | No data | 62 | 67M/53F | 240 | 88 | 152 | No data | No data |
| Drage et al., 2013 | Case series | 2009-2011 | 14.5 | 145M/184F | 584 | 474 | 110 | 120 | No data |
| Goller-Bulut et al., 2015 | Cross-sectional | No data | 38.8 | 101M/104F | 410 | 410 | 0 | 159 | No data |
| Gutierrez Mesa et al., 2018 | Cross-sectional | 2016-2016 | 47.04 | 116M/254F | 740 | 463 | 277 | No data | No data |
| Horwitz et al., 2017 | Case series | 2013-2015 | 55 | 35M/46F | 162 | 48 | 114 | 23 | No data |
| Hsiao et al., 2019 | Cross-sectional | 2009-2013 | 48.53 | 320M/360F | 1,360 | 998 | 362 | No data | No data |
| Kalavagunta et al., 2003 | Case series | 2001-2001 | No data | No data | 400 | 364 | 36 | No data | No data |
| Kaplan et al., 2004 | Prospective | 1999-2001 | 47 | 30M/34F | 128 | 48 | 80 | No data | No data |
| Kawai et al., 2018 | Case series | 2016-2017 | 28.7 | 61M/108F | 338 | 303 | 35 | 19 | 12 |
| Maillet et al., 2011 | Case series | 2006-2008 | 57.3 | 49M/33F | 164 | 29 | 135 | 100 | 21 |
| Manji et al., 2013 | Cross-sectional | No data | 54.8 | 115M/160F | 550 | 303 | 247 | No data | No data |

(continued)

Table 1. Counts and general characteristics included in the articles (*continued*).

| Author/year | Type of study | Period of study | Average age | No. Patients M/f | No. Maxillary sinuses | No. Physiological sinuses | No. Pathological sinuses | Dental pathology | Dental treatment |
|---------------------------|-----------------|-----------------|-------------|------------------|-----------------------|---------------------------|--------------------------|------------------|------------------|
| Nascimento et al., 2016 | Case series | 2010-2011 | 47.09 | 182M/218F | 766 | 108 | 658 | 580 | 234 |
| Nunes et al., 2015 | Case series | 2009-2013 | 41.2 | 75M/125F | 321 | 178 | 143 | 92 | No data |
| Pazera et al., 2010 | Case series | 2006-2008 | 17.5 | 63M/76F | 139 | 74 | 65 | No data | No data |
| Phothikhun et al., 2012 | Case series | 2009-2009 | 46.1 | 110M/140F | 500 | 304 | 196 | 539 | 21 |
| Pokorny et al., 2013 | Case series | 2010-2012 | 48 | 11M/20F | 33 | 0 | 33 | 24 | No data |
| Raghav et al., 2015 | Cross-sectional | No data | 32.09 | 110M/91F | 402 | 162 | 240 | No data | 38 |
| Ritter et al., 2011 | Cross-sectional | No data | 44.19 | 533M/493F | 2,058 | 1,403 | 655 | No data | No data |
| Roque-Torres et al., 2016 | Case series | No data | 22 | 31M/78F | 218 | 142 | 76 | 0 | 0 |
| Rudralingam et al., 2002 | Case series | No data | No data | No data | 744 | 744 | 0 | No data | No data |
| Selcuk et al., 2008 | Case series | 2006-2007 | No data | No data | 660 | 509 | 151 | No data | No data |
| Tadinada et al., 2016 | Cross-sectional | 2008-2013 | 53.2 | 17M/19F | 72 | 49 | 23 | No data | No data |
| Taher et al., 1992 | Retrospective | No data | 36 | 62M/52F | 228 | 214 | 14 | No data | No data |
| Tassoker et al., 2019 | Case series | 2013-2018 | 32.93 | 76M/124F | 400 | 215 | 185 | 141 | No data |
| Terlemez et al., 2019 | Cohort | No data | 28.58 | 111M/174F | 570 | 327 | 243 | 157 | 112 |
| Troeltzsch et al., 2015 | Case series | 2006-2013 | 52.7 | 102M/72F | 174 | 0 | 174 | 150 | 150 |
| Wai et al., 2017 | Case-control | 2016-2017 | 29 | 53M/103F | 310 | 270 | 40 | No data | No data |
| William et al., 2008 | Case series | No data | No data | No data | 5,080 | 4,955 | 125 | No data | No data |
| Yalcin et al., 2019 | Case series | 2015-2017 | 34.72 | 155M/170F | 650 | 258 | 392 | No data | No data |

F: Female; M: Male

APPENDIX 2

Table 4. Sinus findings grouped into subgroups.

| AUTHOR/YEAR | INFLAM- MATION | INFECTION | TUMOUR | LOW PNEUMA- TISATION | HIGH PNEU- MATISATION | FOREIGN BODY | SYMPTOMS | IATROGENY | TOTAL FINDINGS |
|-----------------------------|-------------------|-----------|---------|-------------------------|--------------------------|-----------------|----------|-----------|-------------------|
| Aksoy et al., 2018 | 265 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 265 |
| Almeida et al., 2015 | 406 | No data | 71 | No data | No data | 6 | No data | No data | 483 |
| Ani et al., 2016 | 17 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 17 |
| Avsever et al., 2017 | 605 | No data | 25 | 24 | No data | No data | No data | No data | 654 |
| Bajoria et al., 2019 | No data | 387 | 6 | No data | No data | 1 | No data | No data | 394 |
| Bornstein et al., 2018 | 52 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 52 |
| Cavalcanti et al., 2018 | No data | No data | No data | No data | 181 | No data | No data | No data | 181 |
| Chen et al., 2010 | 3 | 95 | 18 | No data | No data | No data | No data | No data | 116 |
| Connor et al., 2000 | 48 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 48 |
| Constantine et al., 2018 | 776 | 153 | 155 | No data | No data | No data | No data | 4 | 1,088 |
| Dedeoğlu et al., 2019 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 108 | 108 |
| Dobele et al., 2013 | 53 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 53 |
| Dorothea et al., 2013 | 76 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 76 |
| Drăgan et al., 2014 | 68 | No data | 2 | No data | No data | No data | No data | No data | 70 |
| Drage et al., 2013 | 79 | No data | 23 | 3 | No data | 5 | No data | No data | 110 |
| Goller-Bulut et al., 2015 | 766 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 766 |
| Gutierrez Mesa et al., 2018 | 277 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 277 |
| Horwitz et al., 2017 | 113 | 0 | No data | No data | No data | No data | 57 | No data | 170 |
| Hsiao et al., 2019 | 357 | No data | No data | No data | No data | 5 | No data | No data | 362 |
| Kalavagunta et al., 2003 | No data | 163 | No data | 5 | 16 | No data | No data | No data | 184 |
| Kaplan et al., 2004 | 28 | 29 | 7 | No data | No data | No data | No data | No data | 64 |
| Kawai et al., 2018 | 77 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 77 |
| Maillet et al., 2011 | No data | 135 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 135 |
| Manji et al., 2013 | 124 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 124 |

(continued)

Table 4. Sinus findings grouped into subgroups (*continued*).

| AUTHOR/YEAR | INFLAM- MATION | INFECTION | TUMOUR | LOW PNEUMA- TISATION | HIGH PNEU- MATISATION | FOREIGN BODY | SYMPTOMS | IATROGENY | TOTAL FINDINGS |
|---------------------------|-------------------|-----------|---------|-------------------------|--------------------------|-----------------|----------|-----------|-------------------|
| Nascimento et al., 2016 | 592 | 42 | 24 | No data | No data | No data | No data | No data | 658 |
| Nunes et al., 2015 | 76 | No data | 6 | No data | No data | 5 | No data | No data | 87 |
| Pazera et al., 2010 | 60 | 5 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 65 |
| Phothikhun et al., 2012 | 146 | No data | 50 | No data | No data | No data | No data | No data | 196 |
| Pokorny et al., 2013 | 6 | 26 | 1 | No data | No data | No data | No data | No data | 33 |
| Raghav et al., 2015 | 237 | No data | No data | No data | No data | 3 | No data | No data | 240 |
| Ritter et al., 2011 | 588 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 588 |
| Roque-Torres et al., 2016 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 0 |
| Rudralingam et al., 2002 | 360 | 4 | 6 | No data | No data | No data | No data | No data | 370 |
| Selcuk et al., 2008 | 100 | No data | No data | 31 | 3 | No data | No data | No data | 134 |
| Tadinada et al., 2016 | 4 | No data | 19 | No data | No data | No data | No data | No data | 23 |
| Taher et al., 1992 | 14 | No data | 2 | No data | No data | No data | No data | No data | 16 |
| Tassoker et al., 2019 | 141 | No data | No data | No data | No data | 44 | No data | No data | 185 |
| Terlemez et al., 2019 | 243 | No data | No data | No data | No data | No data | No data | No data | 243 |
| Troeltsch et al., 2015 | 174 | 136 | 21 | No data | No data | 3 | No data | 60 | 394 |
| Wai et al., 2017 | 29 | No data | 56 | No data | No data | No data | No data | No data | 85 |
| William et al., 2008 | No data | No data | 101 | 1 | No data | No data | No data | No data | 102 |
| Yalcin et al., 2019 | 319 | No data | 73 | No data | No data | No data | No data | No data | 392 |
| TOTAL | 7,279 | 1,175 | 666 | 64 | 200 | 72 | 57 | 172 | 9,685 |

ARTÍCULO DE REVISIÓN

DEHISCENCIA DE PARED ANTERIOR DE CONDUCTO AUDITIVO EXTERNO CON AFECTACIÓN DE ARTICULACIÓN TEMPOROMANDIBULAR TRAS CIRUGÍA DE EXÓSTOSIS. REVISIÓN SISTEMÁTICA

Dehiscence of the anterior wall of the external auditory canal with involvement of the temporomandibular joint after exostosis surgery. Systematic review

Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN ; Patricia CORRIOLS-NOVAL ; Eugenia LÓPEZ-SIMÓN ;

Belén SALVATIERRA-VICARIO ; Ramón COBO-DÍAZ; Yaiza GARCÍA-IBÁÑEZ ;

Yolanda LONGARELA-HERRERO

Hospital universitario Marqués de Valdecilla. Servicio de Otorrinolaringología. Santander. España.

Correspondencia: minerva.rmartin@gmail.com

Fecha de recepción: 27 de febrero de 2022

Fecha de aceptación: 24 de marzo de 2022

Fecha de publicación: 3 de abril de 2022

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

RESUMEN: Introducción y objetivo: Realizar una revisión sistemática para evaluar la incidencia en la literatura de esta complicación tan infrecuente en cirugía otológica, como es la afectación de la articulación temporomandibular (ATM). Método: Considerando la apertura iatrogénica de la ATM tras cirugía otológica una complicación excepcional, se realiza una revisión de la literatura de dicha patología siguiendo el método PRISMA para revisiones sistemáticas evaluando las bases de datos electrónicas PubMed, Web of Science y Cochrane. Resultados: Se incluyeron 3 artículos con casos publicados de fistulización CAE-ATM y un caso propio. Todos presentaban exploración compatible mediante otoscopia con o sin sintomatología referida por el paciente y que precisasen tratamiento quirúrgico o conservador. Se encontraron un total de 5 casos (4 mujeres y 1 varón), con edades comprendidas entre los 40 y 70 años, con diagnóstico de comunicación CAE-ATM secundaria a canaloplastia. Tres de ellos presentaron enfisema cervical entre los síntomas y

signos acompañantes. El tratamiento fue conservador en tres casos mientras que los otros dos precisaron reparación quirúrgica. Discusión/Conclusiones: La canaloplastia es un procedimiento habitual en cirugía otológica que precisa de una técnica de disección meticulosa para evitar daños a estructuras importantes como el nervio facial o la ATM. Presenta baja tasa de complicaciones siendo muy excepcional la fistulización hacia la articulación temporomandibular. No obstante, debemos sospecharla ante dolor persistente, otorrea, bloqueo o chasquido mandibular y, por supuesto, enfisema.

PALABRAS CLAVE: dehiscencia de CAE; ATM; enfisema; canaloplastia; exóstosis; cirugía otológica

SUMMARY: Introduction and objective: Carry out a systematic review to evaluate the incidence in the literature of this rare complication in otological surgery, such as the involvement of the temporomandibular joint (TMJ). Method: Iatrogenic opening of the TMJ after otological surgery attended is very infrequent, a review of the literature about this pathology was carried out following the PRISMA method for systematic reviews evaluating the electronic databases PubMed, Web of Science and Cochrane. Results: 3 articles with published cases of EAC-TMJ fistulization and one of our own were included. All presented compatible exploration by otoscopy with or without symptoms reported by the patient and requiring surgical or conservative treatment. A total of 5 cases were found (4 women and 1 man), aged between 40 and 70, with a diagnosis of EAC-TMJ communication secondary to canaloplasty. Three of them presented cervical emphysema among the accompanying symptoms and signs. Treatment was conservative in three cases, while the other two required surgical repair. Discussion/Conclusions: Canaloplasty is a common procedure in otological surgery that requires a meticulous dissection technique to avoid damage to important structures such as the facial nerve or the TMJ. It presents a low rate of complications, being fistulization towards the temporomandibular joint very exceptional. However, we must suspect it in the presence of persistent pain, otorrhea, jaw blockage or clicking and, of course, emphysema.

KEYWORDS: auditory canal dehiscence; TMJ; enfisema; canaloplasty; exostosis; otologic surgery.

INTRODUCCIÓN

La exostosis del conducto auditivo externo (CAE) es un sobrecrecimiento de la porción ósea del mismo de base amplia y generalmente, bilateral o múltiple. El principal desencadenante conocido es la exposición a agua fría, sobre todo en etapas de crecimiento, y, por eso, es una patología frecuente en surfistas y nadadores de agua fría; con una incidencia especialmente elevada en Australia y Nueva Zelanda [1]. Generalmente los pacientes con exóstosis suelen estar asintomáticos hasta que el sobrecrecimiento óseo reduce el diámetro del CAE a menos de 3 mm. Esto conlleva el acúmulo de cerumen y la formación de tapones que condicionan hipoacusia de transmisión y acúfenos, así como la predisposición a las otitis externas en relación

directa con la exposición al agua ya comentada. El principal diagnóstico diferencial de las exóstosis son los osteomas de CAE, que constituyen una verdadera neoplasia benigna del hueso, en la mayoría de los casos, también asintomáticos, pero habitualmente unilaterales [2].

El tratamiento de las exóstosis consiste en la prevención de la exposición al agua fría usando tapones o siliconas que sellen el CAE para evitar la entrada de agua, y el tratamiento de las infecciones con antibiótico tópico en las fases agudas. Cuando esto no es suficiente y la otitis externa comienza a ser crónica, muy recurrente o aparece hipoacusia de transmisión está indicado el tratamiento quirúrgico. Esta cirugía consiste en la extirpación de la exóstosis, normalmente utilizando un abordaje transmeatal o retroauricular. Los principales

riesgos quirúrgicos son el daño a la membrana timpánica o estructuras del oído medio incluido el nervio cuerda del tímpano, daño a la articulación temporomandibular (ATM), estenosis cicatricial del canal auditivo y, la más temida, la lesión del nervio facial [3].

El objetivo de nuestro estudio es evaluar la incidencia de la dehiscencia de la pared anterior del conducto auditivo externo con afectación de la articulación temporomandibular como complicación infrecuente en cirugía otológica mediante revisión bibliográfica sistemática.

MATERIAL Y MÉTODO

El método de análisis y los criterios de inclusión fueron especificados previamente y recogidos en forma de protocolo. La revisión se hizo siguiendo los criterios PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analysis*).

Los criterios de inclusión aceptados fueron: 1) casos publicados de pacientes de cualquier edad y sexo con diagnóstico de comunicación ATM-CAE secundaria a cirugía de exóstosis; 2) casos que incluyesen una descripción clínica básica de la edad, sexo, presentación clínica, y tratamiento; 3) estudios escritos en español, inglés o en cualquier idioma si han sido traducidos al inglés.

Se excluyeron de la revisión: 1) las publicaciones anteriores a 1990; 2) las publicaciones que no incluyeran de manera clara los datos anteriormente descritos como edad, sexo o tratamiento; 3) los casos de fistulas secundarias a otras cirugías otológicas, no de exóstosis, así como de cualquier otra causa y 4) las publicaciones con material redundante.

Se llevó a cabo una búsqueda activa de casos en las bases de datos PubMed, en la Biblioteca Cochrane y en Web of Science desde el año 1990 hasta diciembre de 2021 incluidos.

Se usaron los siguientes términos para la búsqueda de casos publicados en dichas bases de datos: (*[temporomandibular joint herniation OR*

auditory canal fistula OR auditory canal dehiscence]); (*[temporomandibular joint herniation OR auditory canal fistula OR auditory canal dehiscence] AND exostosis*); (*[temporomandibular joint herniation OR auditory canal fistula OR auditory canal dehiscence] AND otologic surgery*). En la búsqueda se utilizaron términos MeSH y palabras libres. La búsqueda fue adaptada convenientemente para utilizarla en las bases de datos de la Biblioteca Cochrane y Web of Science.

Dos autores realizaron de forma independiente la selección de artículos de forma estandarizada de acuerdo con los criterios previamente establecidos y cualquier desacuerdo fue resuelto por consenso. Después del cribado inicial, se investigó el texto completo de los artículos seleccionados. Las razones de exclusión de los artículos que fueron eliminados se registraron. Se extrajeron y analizaron los siguientes datos de todos los artículos incluidos en la revisión: 1) características de los pacientes (incluyendo sexo y edad); 2) identificación de los síntomas acompañantes y 3) tipo de tratamiento.

La calidad metodológica de los estudios incluidos y la posibilidad de sesgos fueron evaluadas de forma independiente por los dos autores. En caso de discrepancia entre ambos, un tercer revisor actuó como mediador. Se consideró la posibilidad de sesgo de publicación y la falta de homogeneidad entre artículos.

RESULTADOS

La búsqueda inicial ofreció un total de 177 resultados (Figura 1). De estos, 170 artículos fueron descartados tras la lectura del título y/o los resúmenes porque no cumplían los criterios de inclusión definidos *a priori*. El texto completo de los 7 artículos restantes fue examinado en detalle. Dos de ellos se excluyeron pues describían casos secundarios a cirugías otológicas [4,5], no de canaloplastia y, otro se excluyó porque, aunque sí refería el antecedente de cirugía de exóstosis en 5 casos [6], no definía claramente la edad, sexo, clínica ni

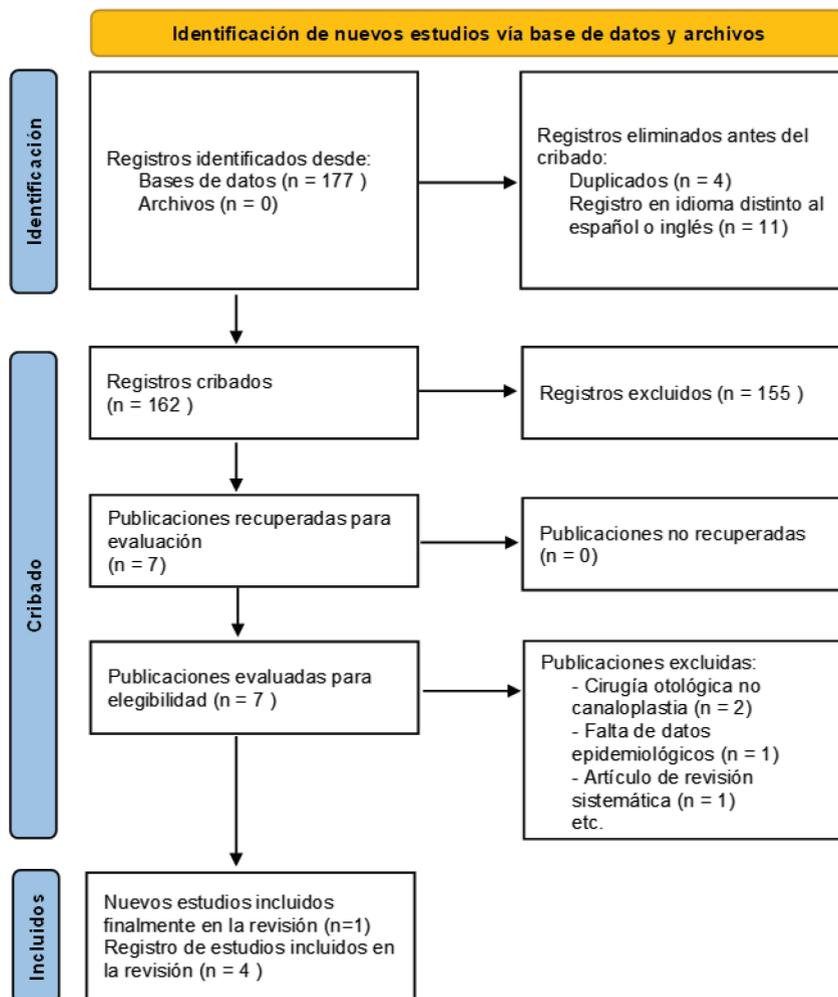


Figura 1. Diagrama PRISMA con los resultados de la búsqueda.

tratamiento de esos pacientes. El último artículo descartado se trata de una revisión sistemática de la literatura sobre herniación de la articulación temporomandibular, incluyendo todas sus causas [7]. Finalmente, se incluyó un artículo de nueva publicación en esta revista [8]. Un resumen de los principales resultados está reflejado en la tabla 1, organizados de cronológicamente de la publicación más antigua a la más reciente.

Los trabajos sometidos a revisión fueron llevados a cabo desde el año 1994 hasta el 2021, ambos incluidos, en 4 países (Inglaterra, Australia, EE. UU., España). Cada autor describió un caso salvo Crombie A. que reportó dos casos.

Finalmente se incluyeron 3 artículos que cumplían los criterios de inclusión propuestos y fueron seleccionados para la revisión sistemática. Tras la lectura de los diferentes resúmenes

publicados, se excluyeron los artículos que no cumplían los criterios y aquellos que aparecieron duplicados.

La revisión incluye 5 pacientes, 4 varones y una mujer con edades comprendidas entre los 40 y los 70 años.

La clínica apareció a las pocas semanas de la cirugía para todos ellos, sin aparentes alteraciones durante la intervención quirúrgica. Uno de los casos se encontraba asintomático y la dehiscencia fue puesta en evidencia durante la exploración rutinaria postcirugía. El resto de los casos presentaron los síntomas comunes de otorrea, otalgia y ruidos o chasquidos en relación con los movimientos mandibulares. Además, tres de los casos presentaron enfisema a los cuales se les realizó una prueba de imagen mediante TC poniendo de manifiesto tanto el enfisema como el defecto en el CAE.

Con respecto al tratamiento, dos casos precisaron utilizar férula de avance mandibular durante no más de 3 meses y, en otro caso, fue suficiente con tratamiento conservador mediante mechas impregnadas en antibiótico tópico y reposo de la ATM sin precisar férula. Los otros dos casos precisaron reparación quirúrgica con cartílago y pericondrio del trago así como fijación intermaxilar.

DISCUSIÓN

La comunicación entre el CAE y la ATM es una complicación que en la mayor parte de los casos está relacionados con fistulización secundaria a otitis externa u otitis externa maligna, traumatismos (por ejemplo, fractura de cóndilo mandibular), colesteatoma, defecto congénito como el foramen de Huschke o tras radioterapia de cabeza y cuello. También de forma infrecuente pueden deberse a cirugía otológica o de la ATM, o incluso, pueden favorecerlo algunas enfermedades reumatológicas [7].

En la mayoría de los casos se trata de pacientes asintomáticos en los que no aparecen complicaciones; sin precisar tratamiento quirúrgico. De hecho, la incidencia de la dehiscencia de CAE tras cirugía

de exóstosis probablemente sea mucho mayor de la documentada dados los pocos síntomas y la poca repercusión que suele tener en la evolución postoperatoria [12].

Tabla 1. Revisión de casos de comunicación CAE-ATM secundarios a cirugía de canaloplastia.

| Autor (año) | Edad y sexo | Clínica | Tratamiento |
|------------------------------------|---------------|--|--|
| Von Blumenthal H. (9) (1994) | 40 años Varón | Enfisema | Conservador Antibiótico tópico |
| Crombie A. (10) (2010) | 70 años Varón | Otorrea Dehiscencia de CAE anterior | Férula de avance mandibular |
| Crombie A. (2010) | 50 años Varón | Asintomático Dehiscencia CAE manifiesta por otoscopia | Férula de avance mandibular |
| Baxter M. (11) (2017) | 60 años Varón | Otalgia, ruidos con movimientos mandibulares, enfisema | Reparación quirúrgica con cartílago tragal |
| Rodríguez <i>et al.</i> (8) (2022) | 47 años Mujer | Otalgia, otorrea, enfisema | Reparación quirúrgica con cartílago tragal |

Cabe remarcar, que, en manos expertas, se trata de una cirugía con pocas complicaciones y baja tasa de reestenosis de CAE de acuerdo con las series publicadas; siendo las más frecuentes la perforación timpánica y la apertura de celdas mastoideas [13,14].

Continuando con la comunicación entre CAE y ATM, cuando aparecen síntomas, los más frecuentes son otalgia e inflamación, hipoacusia y otorrea [7]. En esos casos, por un lado, debemos tener en cuenta que la presencia de otorrea en el postoperatorio nos obliga a hacer diagnóstico diferencial con infección de oído medio o externo. Por otro lado, en este artículo, queremos resaltar la aparición de enfisema parafaríngeo o cervical por su excepcionalidad tras este tipo de cirugías. De acuerdo con la teoría publicada por von Blumenthal [9] y compartida por Baxter [11], podemos postular

que, debido a que la cápsula de ATM queda dehiscente en estos casos, se puede generar una presión negativa considerable dentro del espacio articular durante el deslizamiento hacia adelante del cóndilo entrando así aire en la articulación. En el movimiento inverso de la mandíbula, la dehiscencia se cierra generando la presión positiva requerida para que el aire no pueda salir y acaba difundándose a los planos de tejido circundantes, como el espacio parafaríngeo. La rápida resolución del enfisema quirúrgico por restricción de los movimientos de la mandíbula apoyaría esta hipótesis.

Por lo tanto, la presencia de bloqueo o chasquido mandibular y enfisema sumado al antecedente de cirugía previa nos obliga a descartar una fistula entre el conducto auditivo externo y la articulación temporomandibular. Si bien es cierto, que en la mayoría de los casos presentan buena evolución con manejo conservador, en caso de no mejoría, el cierre de la fistula es el único tratamiento definitivo para la resolución de los síntomas.

Varias opciones quirúrgicas han sido descritas para el cierre del defecto como la utilización de cartílago autólogo [11], musculo temporal [5], injerto de fascia lata o incluso placa de titanio [7] con buenos resultados por norma general. Pero dado que la concurrencia de casos no es muy elevada, no se puede establecer que técnica predomina por encima de otra.

En nuestra opinión, el cartílago y pericondrio tragal resultan relativamente fáciles y rápidos de obtener con un buen resultado para fistulas pequeñas con mínima invasión de CAE. El bloqueo intermaxilar constituye una gran ayuda para facilitar la cicatrización del injerto ya que impide el movimiento de ATM y por lo tanto también, la entrada de aire a la fosa glenoidea disminuyendo progresivamente el enfisema.

CONCLUSIONES

La canaloplastia es un procedimiento habitual en cirugía otológica que precisa de una técnica de disección meticulosa para evitar daños a

estructuras importantes como el nervio facial o la ATM. La fistulización hacia la articulación temporomandibular es una complicación excepcional de esta cirugía y debemos sospecharla ante dolor persistente, otorrea, bloqueo o chasquido mandibular y, por supuesto, enfisema. En caso de lesión de la ATM, si la reparación quirúrgica esta indicada, el uso de cartílago tragal y el bloqueo maxilar es una técnica efectiva y con buen resultado.

BIBLIOGRAFÍA

1. Wenig BM. Atlas of head and neck pathology. 3a ed. Filadelfia, PA, Estados Unidos de América: Elsevier - Health Sciences Division; 2015.
2. Gurgel RK, Harnsberger HR. EAC Osteoma. En: Imaging in Otolaryngology. Filadelfia, PA, Estados Unidos de América: Elsevier - Health Sciences Division; 2018. p. 412.
3. Roberson JB Jr, Perkins R. Canalplasty for exostoses of the external auditory canal and miscellaneous auditory canal problems. En: Otolologic Surgery. Elsevier; 2010. p. 21-31.
4. Selesnick SH, Carew JF, DiBartolomeo JR. Herniation of the temporomandibular joint into the external auditory canal: a complication of otologic surgery. *Am J Otol.* 1995 Nov;16(6): 751-7
5. Sinn DP, Tharanon W, Culbertson MC Jr, Goldman KE. Surgical correction of an aural-temporomandibular joint fistula with a temporalis flap. *J Oral Maxillofac Surg.* [Internet] 1994 Feb;52(2):197-200. Disponible en: [http://dx.doi.org/10.1016/0278-2391\(94\)90411-1](http://dx.doi.org/10.1016/0278-2391(94)90411-1)
6. Portmann D, Guindi S, Sribniak I, Arcaute Aizpuru F. Herniation of the temporomandibular joint into the external auditory canal: Our review of 13 cases. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord).* 2014;135(4-5):187-190.
7. Jo YS, Cheong TY, Han BH, Lee JM, Kim SH, Moon IS. Temporomandibular Joint Herniation: Review of the Literature. *Otol Neurotol* [Internet]. 2020; 41(1): e1-e6. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1097/MAO.0000000000002459>

8. Rodríguez-Martín M, Corriols-Noval P, López-Simón E, Salvatierra-Vicario B, Cobo-Díaz R, García-Ibáñez Y et al. Dehiscencia de pared anterior de conducto auditivo externo con afectación de articulación temporomandibular tras cirugía de exóstosis. Descripción de un caso. *Rev ORL*. 2022. (en prensa)
9. von Blumenthal H, Fisher EW, Adlam DM, Moffat DA. Surgical emphysema: a novel complication of aural exostosis surgery. *J Laryngol Otol* [Internet]. 1994;108(6):490-1. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1017/s0022215100127185>
10. Crombie AK, Batstone MD, Voltz M, Monsour FN, Lynham AJ. Management of temporomandibular-external auditory canal fistulas: a report of 3 cases. *Am J Otol* [Internet]. 2010;31(1), 59-60 Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.amjoto.2008.09.001>
11. Baxter MC, Keller M, Shah A, Wise S. Surgical emphysema following canalplasty for aural exostoses. *Otol Neurotol* [Internet]. 2017;38(8):1174-7. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1097/mao.0000000000001512>
12. Stougaard M, Tos M. Less radical drilling in surgery for exostoses of the external auditory canal. *Auris Nasus Larynx*. 1999 Jan;26(1):13-6. [https://doi.org/10.1016/s0385-8146\(98\)00059-5](https://doi.org/10.1016/s0385-8146(98)00059-5). PMID: 10077251.
13. Grinblat G, Prasad SC, Piras G, He J, Taibah A, Russo A et al. Outcomes of drill canalplasty in exostoses and osteoma: Analysis of 256 cases and literature review. *Otol Neurotol* [Internet]. 2016;37(10):1565-72. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1097/mao.0000000000001239>
14. Altuna Mariezkurrena X., Veá Orte J.C., Camacho Arrioaga J.J., Algaba Guimerá J. Surgical treatment of exostosis in the external auditory canal. *Acta Otorrinolaringol Esp*, 2006; 57: 257-61.

LINFOMA MALT DE GLÁNDULA PARÓTIDA. REVISIÓN SISTEMÁTICA

MALT lymphoma of the parotid gland. Systematic review

Guillermo FERNÁNDEZ-GARCÍA ; Carmen SALOM-COVENAS 

Hospital Universitario de Puerto Real. Servicio de Otorrinolaringología. Puerto Real. Cádiz. España.

Correspondencia: gfsanza@gmail.com

Fecha de recepción: 9 de febrero de 2022

Fecha de aceptación: 6 de mayo de 2022

Fecha de publicación: 14 de mayo de 2022

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

RESUMEN

Introducción y objetivo: Los linfomas de la glándula parótida son una entidad infrecuente. El objetivo de este estudio es realizar una revisión sistemática retrospectiva de la literatura sobre casos clínicos de linfomas MALT parotídeos. Se revisa su epidemiología y clínica más habitual, los métodos diagnósticos y tratamiento empleados y su pronóstico. **Método:** Revisión bibliográfica sistemática. **Resultados:** Se seleccionaron 28 estudios originales de casos o series, de los cuales 10 incluyeron más de 25 pacientes. Todos mostraron mayor incidencia en mujeres, en consonancia con su asociación con la presencia de enfermedades autoinmunes, específicamente con el síndrome de Sjögren. Los estudios evidenciaron la dificultad en el diagnóstico diferencial de otras patologías parotídeas. El tratamiento varió entre estudios, sin mostrar ninguno de ellos un claro beneficio respecto de los demás. **Discusión:** Se trata de un tipo de LNH relacionado principalmente con inflamación autoinmune crónica en el caso de aparición en glándulas salivales. Se presenta como una tumoración asintomática e inespecífica de crecimiento lento. Se diagnostica por su histología y se estudia su extensión mediante TC o RM en la mayoría de los casos. El tratamiento se realiza mediante parotidectomía asociada a quimioterapia y/o radioterapia. La tasa de supervivencia es >80% a los 5 años. **Conclusiones:** Los linfomas MALT de glándulas salivales son poco habituales y ocasionalmente se diagnostican de manera

inadecuada debido a su comportamiento benigno, que mimetiza a tumores más familiares del área parotídea. Su sospecha y distinción son esenciales y no debe olvidarse en el diagnóstico diferencial de masas parotídeas.

PALABRAS CLAVE: linfoma MALT; glándula parótida; linfoma de células B monocitoides.

SUMMARY: Introduction and objective: The parotid gland lymphomas are encountered unfrequently. The objective of this study is do a retrospective systematic review of the literature on parotid MALT lymphomas, to evaluate its epidemiology, clinical presentation, diagnostic methods, treatment, and prognosis. Method: Systematic review. Results: 28 original studies have been included (case report and case series), 10 of which included more than 25 cases. Studies showed a higher prevalence in women, according to its relationship with autoimmune diseases, Sjögren disease specifically. The studies outlined the difficulty on the differential diagnosis with other parotid diseases. Treatment varied between studies, with no specific benefit for any of them. Discussion: This lymphoma is a type of NHL related to chronic autoimmune inflammation in case of salivary glands localization. It presents as an asymptomatic and non-specific, slow growing mass. It is diagnosed by CT or MRI in the majority of cases. The treatment includes the association of parotidectomy and/or chemotherapy and/or radiotherapy. The 5-year survival rate is >80%. Conclusions: MALT salivary lymphomas are a rare entity that can be easily misdiagnosed by other common benign masses. We must suspect and don't forget this entity from the differential diagnosis diagram.

KEYWORDS: MALT lymphoma; parotid gland; monocytoid B-cell lymphoma.

INTRODUCCIÓN

El linfoma de tejido linfoide asociado a mucosas (MALT) es una entidad poco común de linfoma no Hodgkin (LNH), que se desarrolla a expensas de las células B ubicadas en el tejido linfoide de las membranas mucosas. Su localización en las glándulas salivales es infrecuente, representando el 4% de todos los linfomas. Entre los linfomas parotídeos, el 20% corresponde a linfomas tipo Hodgkin (LH) y el 80% a LNH. Dentro de este último tipo, se encuentran los linfomas MALT, también conocidos como linfomas de células B monocitoides, siendo el subtipo más común de linfoma extranodal primario y, por ende, el más frecuentemente encontrado en la glándula parótida [1-2]. Los linfomas de glándulas salivales pueden presentar un retraso en su diagnóstico debido a su comportamiento relativamente benigno, que mimetiza a tumores más frecuentes del área parotídea.

El objetivo de este estudio es realizar una revisión actualizada de la epidemiología, clínica, diagnóstico, tratamiento y pronóstico de los tumores MALT de parótida.

MATERIAL Y MÉTODO

Búsqueda bibliográfica en PubMed, EMBASE y WoS. Los términos utilizados en la búsqueda fueron *lymphoma MALT*, *parotid gland* y *monocytoid B-cell lymphoma*. Como criterios de selección, se incluyeron todos los estudios clínicos y epidemiológicos en humanos, descartando los estudios en animales y los centrados en el ámbito inmunohistoquímico y de genética molecular, los artículos que no estuvieran en inglés o español y los estudios con material redundante. Se abarcaron todos los estudios de casos y series de casos de cualquier edad y sexo con diagnóstico de linfoma MALT de glándula parótida, que incluyeran datos de clínica, diagnóstico y tratamiento. Dado el limitado número de estudios encontrados, no se aplicaron filtros adicionales y se procedió a una selección manual para el estudio cualitativo. La revisión se realizó siguiendo los criterios PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analysis*) [3].

RESULTADOS

En total, se seleccionaron 28 estudios originales de casos o series que cumplían los criterios de inclusión, de los que 10 de ellos incluyeron más de 25 pacientes. En la Figura 1 se resume el proceso de selección de los artículos. La Tabla 1 recoge los artículos seleccionados.

Vázquez et al [4] estudiaron retrospectivamente 507 casos de linfoma MALT de glándulas salivales, de los cuales 370 (73%) se produjeron en mujeres, 374 (75%) en >50 años, la glándula parótida estuvo implicada en el 81% de los mismos y 273 pacientes (54%) presentaron un estadio I en el momento del diagnóstico. No encontraron diferencias en el pronóstico asociadas al tipo de tratamiento (cirugía y/o RT), pero sí asociadas a la raza (peor pronóstico en afroamericanos) y al estadio (peor pronóstico en los estadios más avanzados).

Otro estudio retrospectivo de 13 centros pertenecientes a la red de Cánceres Raros (EURACAN) de 10 países distintos incluyó 63 pacientes con linfoma MALT de glándulas salivales. La edad media fue de 58 años, y 47 pacientes fueron mujeres. La glándula parótida estuvo implicada en 49 casos, y en 9 pacientes hubo varias glándulas implicadas. La mayoría se detectaron en estadio IE. La tasa de recurrencia a los 5 años fue del 35%. Sin embargo, ésta no afectó a la supervivencia. En esta serie, sólo la radioterapia (RT) aumentó la supervivencia libre de enfermedad [5].

Otro estudio relevante de linfoma MALT de parótida, incluyó 28 casos retrospectivos, todos los tratados en el Hospital Universitario de Viena durante 11 años [6]. En el estudio, se evidencian 19 (68%) mujeres, con una media de edad de 49 años. En 10 (36%) casos se presentó enfermedad con diseminación a distancia (25% con afectación parótida bilateral y el resto con afectación de otras zonas extranodales). Se evidenció enfermedad autoinmune subyacente en 18 (64%) pacientes,

siendo el síndrome de Sjögren la entidad más frecuente (78%). No se observaron diferencias en la evolución clínica entre los casos con enfermedad autoinmune y los libres de la misma. En 12 (46%) casos se presentó alguna recaída (media de tiempo de recaída: 18 meses). No se observó asociación con diseminación a tracto gastro-intestinal. La supervivencia a los 5 años fue del 86%, no obstante, solo un paciente falleció por recaída del linfoma.

Mantsopoulos et al [7] examinaron retrospectivamente una serie de 66 pacientes diagnosticados entre 2005 y 2017 de linfoma de glándula parotídea. Las entidades histológicas más frecuentes fueron linfoma MALT (31%) y linfoma folicular (28%). El estadio I es el más frecuente al diagnóstico (52%). El diagnóstico se realizó tras parotidectomía en 50 (76%) casos, mediante biopsia de aguja fina en 14 (21%) y biopsia abierta en el resto de los pacientes (3%). Se destacó que los linfomas de glándula parótida pueden fácilmente mimetizar tanto condiciones benignas como malignas y que deben incluirse siempre en el diagnóstico diferencial de prácticamente todos los tipos de lesiones parotídeas.

Zhang et al [8] estudiaron una serie retrospectiva de 72 casos del hospital *Shanghai Ninth People's*. La relación varón/mujer fue 1:2,8, y la edad mediana de 57 años. En 9 (12,5%) pacientes se evidenciaron múltiples masas. Entre los que presentaron una masa única, la glándula parótida estuvo implicada en 54 (75%) individuos. Se presentó una enfermedad autoinmune en 25 (35%) de casos, siendo el síndrome de Sjögren el más frecuente. La trisomía 3 constituyó el cambio epigenético más frecuente (58%), especialmente en pacientes sin síndrome de Sjögren, seguida de la trisomía 18 (10%). La supervivencia a los 5 años fue del 94% y la supervivencia libre de enfermedad a los 5 años fue del 85%. La trisomía 18 presentó mayor posibilidad de recurrencia.

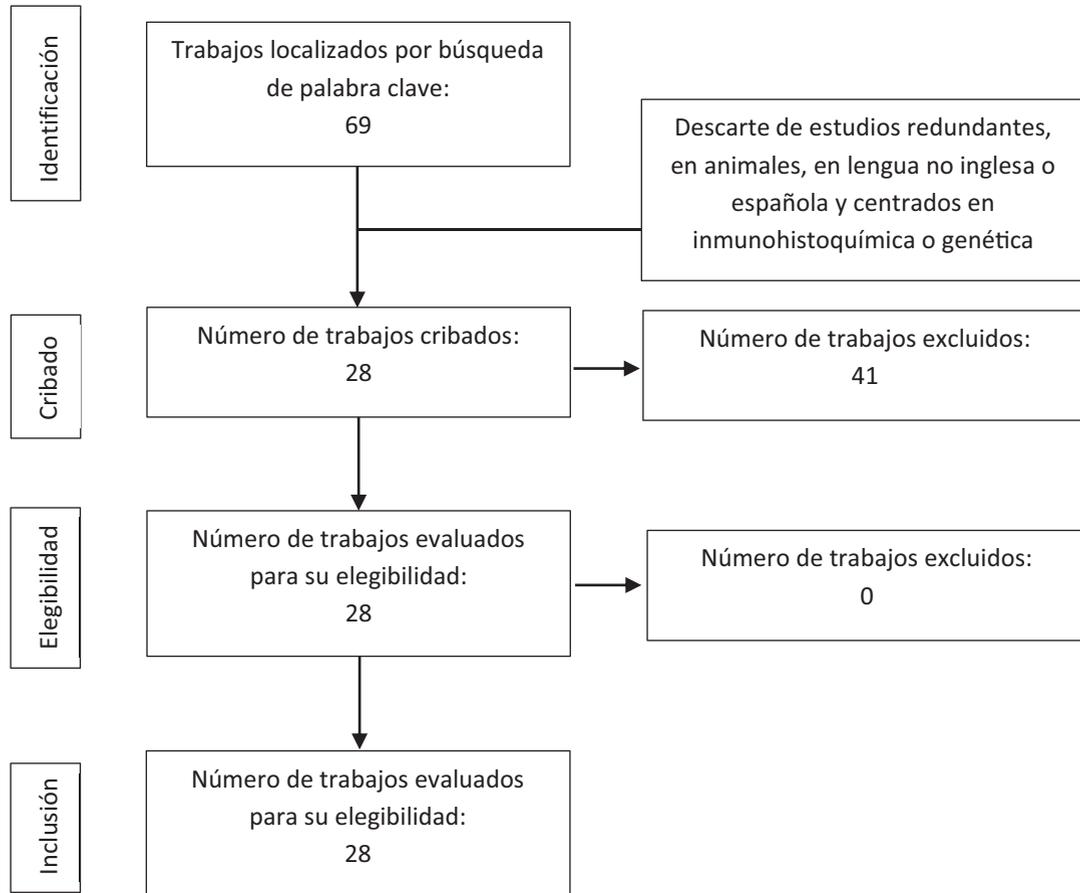


Figura 1. Diagrama de flujo del proceso de revisión sistemática.

DISCUSIÓN

Los linfomas abarcan un heterogéneo grupo de tumores que nacen de los sistemas reticuloendotelial y linfático y se originan principalmente en los nódulos linfáticos. Los tipos principales son el linfoma Hodgkin y linfoma no Hodgkin. Los LNH corresponden al 25% de todos los cánceres de cabeza y cuello y se incluyen en menos del 5% de los tumores malignos de la región parotídea [9]. Los linfomas MALT, descritos inicialmente en 1983, son un subtipo de LNH constituido por

grupos no encapsulados de linfocitos localizados en el tejido mucoso del tracto aéreo-digestivo [10].

Los tumores de la glándula parótida representan el 6-8% de todos los tumores de cabeza y cuello [11]. Los tumores benignos de la glándula parótida constituyen la gran mayoría de los tumores de las glándulas salivales. Entre los linfomas parotídeos, el 80% corresponde a LNH, y los más frecuentes son el tipo folicular, difuso de células grandes y asociado a mucosas (MALT) [12]. Este último representa alrededor del 5% de los LNH diagnosticados; sin embargo, es el subtipo más común

LINFOMA MALT DE GLÁNDULA PARÓTIDA. REVISIÓN SISTEMÁTICA
 FERNÁNDEZ-GARCÍA G Y SALOM-COVEÑAS C

Tabla 1. Linfoma MALT de glándula parótida. Artículos incluidos en la revisión.

| Autor | Tipo de Estudio | País | Casos | Objetivo de estudio |
|--------------------------|------------------------------|-----------------|-------|-----------------------------------|
| Zhang et al. 2021 | Retrospectivo, multicéntrico | China | 72 | Etiopatogenia |
| Mantsopoulos et al. 2021 | Retrospectivo, multinacional | Grecia Alemania | 67 | Diagnóstico por imagen |
| Beckers et al. 2020 | Caso clínico | México | 1 | Descripción y revisión |
| Toni et al. 2020 | Caso clínico | Italia | 1 | Descripción y revisión |
| Hwang et al. 2019 | Caso clínico | Corea | 1 | Descripción y revisión |
| Aydin et al. 2016 | Caso clínico | India | 1 | Descripción y revisión |
| Bennett et al. 2015 | Caso clínico | EE. UU. | 1 | Descripción y revisión |
| Vázquez et al. 2015 | Retrospectivo multicéntrico | EE. UU. | 507 | Epidemiología y supervivencia |
| Jackson et al. 2015 | Retrospectivo multicéntrico | Internacional | 247 | Tratamiento y pronóstico |
| Shum et al. 2014 | Caso clínico | EE. UU. | 1 | Descripción y revisión |
| Zhu et al. 2013 | Retrospectivo, unicéntrico. | China | 34 | Diagnóstico por imagen |
| Anacak et al. 2012 | Retrospectivo multicéntrico | EE. UU. | 63 | Clínica, tratamiento, pronóstico |
| Fernández et al. 2012 | Caso clínico | Chile | 1 | Descripción y revisión |
| Pollard et al. 2011 | Restrospectivo unicéntrico | EE. UU. | 329 | Asociación con SS, tratamiento |
| Troch et al. 2010 | Retrospectivo unicéntrico | EE. UU | 24 | Pronóstico |
| Frómata et al. 2010 | Caso clínico | Cuba | 1 | Descripción y revisión |
| Pino et al. 2007 | Caso clínico | Portugal | 1 | Descripción y revisión |
| Tada et al. 2005 | Caso clínico | Japón | 1 | Descripción y revisión |
| Ando M et al. 2005 | Caso clínico | Japón | 1 | Descripción y revisión |
| Vaillo et al. 2004 | Caso clínico | España | 1 | Descripción y revisión |
| Marioni et al. 2004 | Caso clínico | Italia | 1 | Descripción y revisión |
| Tsang et al. 2003 | Retrospectivo multicéntrico | EE. UU. | 103 | Tratamiento |
| Rosenstiel et al. 2001 | Caso clínico | EE. UU. | 1 | Descripción y revisión |
| Biasi et al. 2001 | Caso clínico | Italia | 6 | Descripción y revisión |
| Zinzani et al. 1999 | Retrospectivo, multicéntrico | Italia | 75 | Comportamiento según localización |
| Damborenea et al.1998 | Caso clínico | España | 1 | Descripción y revisión |
| Thieblemont et al. 1997 | Retrospectivo, multicéntrico | EE. UU. | 108 | Descripción y revisión |
| Balm et al. 1993 | Retrospectivo, unicéntrico | Holanda | 7 | Tratamiento |

SS = Síndrome de Sjögren.

de linfoma extranodal [13]. Su incidencia anual se estima en alrededor de 1/313000 [14]. Afecta mayoritariamente a personas mayores de 60 años, con predominio en mujeres sobre varones, en una proporción 1,5:1, en probable relación con la mayor

afectación de enfermedades autoinmunes en las mismas. Es muy poco frecuente en niños [14].

El linfoma MALT afecta principalmente al tracto gastrointestinal (más del 70%), aunque puede abarcar potencialmente cualquier localización que

albergue linfocitos B, describiéndose en glándulas salivales, tiroides, pulmón, anexos oculares, timo, mama o riñón [15]. El área de cabeza y cuello representa el 34% de los casos extraintestinales, localizándose, en orden de frecuencia, en el anillo de Waldeyer, senos paranasales y glándulas salivales [16]. Dentro de este último grupo, las glándulas más afectadas son la parótida, con el 75% de los casos, seguida de la submaxilar (23%) y la sublingual (1%) [17].

Los tumores de la glándula parotídea se relacionan principalmente con radiación [18], tabaco y ciertas infecciones virales (Epstein-Barr, HIV, VPH) [11]. Hasta en el 44% de los pacientes con linfoma MALT se asocian enfermedades autoinmunes, especialmente síndrome de Sjögren [19-26]. Este síndrome ataca a las glándulas exocrinas, especialmente a las glándulas salivales, y da lugar a una proliferación significativa de células B [27], la cual representa un importante factor de riesgo para el desarrollo de un linfoma de glándulas salivales. El incremento del riesgo puede ser de hasta 10 veces superior en un paciente con síndrome de Sjögren [28]. Por lo tanto, el linfoma MALT de glándula parótida debe tenerse en cuenta en el diagnóstico diferencial de cualquier paciente con síndrome de Sjögren que presenta clínica de neoplasia de glándula parótida [29], incluso en niños [30]. Pese a la relación de enfermedades autoinmunes de base con la aparición de linfomas, su presencia no parece afectar al pronóstico del linfoma MALT. La íntima asociación entre el linfoma tipo MALT y condiciones infecciosas crónicas o enfermedades autoinmunes ha sido bien establecida en el caso de infección por *Helicobacter pylori* y su localización en el estómago [1, 2]. No obstante, su etiología ha sido menos estudiada y establecida en apariciones extraestomacales.

Los LNH de la glándula parotídea se presentan habitualmente como una masa indolente de crecimiento lento. Otros síntomas menos frecuentes incluyen inflamación parotídea bilateral, linfadenopatía cervical, dolor o paresia del nervio facial.

La presentación clínica es indistinguible de otras inflamaciones de la glándula y el diagnóstico diferencial incluye tumores benignos y malignos de la glándula parótida.

Antes de proceder a los estudios de imagen, se debe obtener una detallada historia clínica y realizar una exploración física exhaustiva para decidir la técnica de imagen más efectiva a utilizar. Los detalles de la anamnesis incluyen tiempo de evolución de la masa, ritmo de crecimiento, presencia de dolor o molestias faciales, historia previa de cáncer de cabeza, cuello o piel, y presencia de comorbilidades (por ejemplo, enfermedades autoinmunes). La exploración física debe detallar tamaño, movilidad, fijación de la masa a estructuras anatómicas subyacentes, presencia de linfadenopatías locales o distantes y hallazgos sugestivos de parálisis del nervio facial [31, 32].

La evaluación diagnóstica inicial de una masa parotídea debe incluir TAC y RMN, para determinar la localización, forma y tamaño, así como la presencia de afectación extraglandular, linfadenopatía cervical y relación con otras estructuras vitales. Hallazgos óseos como erosión o expansión del hueso temporal o mandibular se aprecian mejor con TAC, mientras que la infiltración de tejidos blandos, extensión intracraneal e invasión perineural se detectan mejor con RMN [31, 33]. Considerando la localización superficial de las glándulas salivales, las imágenes por ultrasonidos (US) pueden jugar un papel en el diagnóstico por su rapidez y coste-efectividad [31].

No se han reportado hallazgos específicos en las imágenes radiológicas en el linfoma MALT de glándula parótida, y pueden encontrarse también en otros trastornos linfoproliferativos, por ejemplo, en pacientes con síndrome de Sjögren y LESA. Los US y el TAC muestran frecuentemente una lesión localizada o difusa en la glándula acompañada de múltiples quistes, que probablemente representan dilataciones focales de los ductos salivales producidos por la compresión de conductos terminales por los linfocitos neoplásicos. Estos quistes pueden

asociar calcificaciones, probablemente resultado de lesiones inflamatorias [34]. Raramente, se pueden detectar granulomas [35]. No se suele detectar linfadenopatía cervical evidente [36]. El 50% de los casos presentan afectación multifocal sincrónica. Se ha descrito afectación parotídea bilateral [37, 38] y coexistencia de tumor de Warthin y MALT [45], especulándose que un estímulo inmunológico a largo plazo por el tumor de Warthin podría causar un tumor MALT de parótida.

Ocasionalmente se ha descrito la presentación del linfoma MALT como una única masa quística de glándula salival [39]. Por tanto, el diagnóstico de un quiste linfoepitelial ha de incluir la posibilidad de un linfoma MALT concurrente, especialmente en el caso de condiciones de riesgo como una linfocitosis monoclonal de células B [40]. En estos casos, debe realizarse una resección quirúrgica completa para establecer el diagnóstico [41].

En cuanto al papel del PET, detecta el 67% de los linfomas MALT de la zona marginal y constituye una prueba fundamental para detectar formas multifocales y conocer su extensión, así como para definir el plan de tratamiento, determinar el pronóstico y permitir comparaciones durante el seguimiento [31].

El diagnóstico definitivo de los linfomas MALT se basa en la histología de la lesión, hematología y análisis bioquímicos. Para ello, además de los estudios de imagen, se obtiene rutinariamente un FNAB o PAAF (biopsia por aspiración con aguja fina), para análisis citológico. El uso de la PAAF en linfomas de cabeza y cuello es seguro [42, 43], pero presenta una tasa del 32% de falsos negativos. Además, su habilidad para diferenciar el tipo histológico de linfoma es baja. Por ello, debido a la dificultad para obtener una muestra definitiva mediante FNAB o PAAF, frecuentemente se debe realizar una parotidectomía parcial para el diagnóstico patológico [31].

Histológicamente, los linfocitos de los linfomas MALT son células marginales de tamaño pequeño o mediano y se clasifican como linfomas

extranodales de células marginales B [44]. Ocasionalmente pueden presentarse asociados a células plasmáticas y macrófagos [45]. Aunque la mayoría de los linfomas de parótida se describen como LNH extranodales, algunos pueden provenir del tejido linfoide asociado a la glándula parótida. El parénquima glandular se suele afectar secundariamente, siendo difícil establecer el origen del linfoma. A pesar de esta controversia, el tipo de tratamiento no cambia.

Debido a la escasez de casos descritos, el tratamiento de los linfomas MALT es controvertido. Generalmente se describe el empleo de radioterapia localizada para estadios I y II, mientras que la terapia sistémica se reserva para estadios avanzados.

El linfoma MALT se considera muy sensible a la RT. El régimen más empleado para estadios iniciales es en dosis de 24 Gy repartida en 12 fracciones [46, 47]. En un estudio retrospectivo de 247 pacientes con linfoma MALT en glándulas salivales, dirigido por Jackson et al [48], la terapia inicial consistió en RT y/o cirugía (57%), quimioterapia (QT) sistémica y/o rituximab (37%) y observación (6%). La media de supervivencia global fue de 18,3 años y no se observaron diferencias entre los pacientes que recibieron tratamiento local o sistémico. Tsang et al [49] estudiaron 103 pacientes en estadio I y II de linfoma MALT y observaron que la radioterapia a dosis moderadas (25-35 Gy) permitía un control local excelente. Por otro lado, otros estudios sugieren que, en los linfomas MALT de parótida de bajo grado, la quimioterapia sola presenta resultados similares a la RT aislada [24, 41].

Considerando una mayor morbilidad de la terapia sistémica, se puede establecer que la quimioterapia no parece necesaria en fases iniciales. Sin embargo, en subtipos más agresivos, como en linfomas de células B grandes difuso, se suele recomendar quimioterapia más RT [50]. El agente más utilizado es el rituximab a dosis estándar (375mg/m²), administrado semanalmente durante un mes. Logvinenko trató con rituximab a 17

pacientes con linfoma MALT asociado a síndrome de Sjögren y reportó la eliminación de signos histológicos de MALT en el 71% de los casos tras 6 meses de tratamiento [51]. Por otra parte, Pollard et al destacó, en una serie retrospectiva de MALT asociado a Sjögren, que la observación expectante en casos de linfoma MALT asintomático en ausencia de síndrome de Sjögren activo, puede ser una opción adecuada pues la mayoría de estos pacientes permanecieron asintomáticos durante un periodo de tiempo prolongado (2-12 años observados, mediana: 6 años) [52].

Se recomienda quimioterapia sin radioterapia asociada en las formas avanzadas o tras una resección incompleta del tumor. Por otra parte, dado que los pacientes con LESA tienen un riesgo 44 veces mayor de desarrollar linfoma maligno de glándulas salivales o extrasalivales, de los cuales el 80% son de tipo MALT [11], se requiere un seguimiento estrecho con nueva biopsia de cualquier lesión persistente o recurrente en este tipo de pacientes [41].

Mientras que la cirugía juega un papel considerable en el manejo de la mayoría de las neoplasias de la glándula parótida, se considera innecesariamente invasiva en el tratamiento de los linfomas de glándula parótida [31]. Su papel queda reservado para tumores de localización única en pacientes con contraindicación a la RT, aunque estos casos son excepcionales debido a las bajas dosis de radiación requeridas [31, 53]. No se han encontrado estudios que establezcan técnicas quirúrgicas de elección, describiéndose exéresis glandulares parciales con preservación del nervio facial. Existen autores que describen mayor riesgo de diseminación solo con tratamiento quirúrgico y recomiendan asociar siempre quimioterapia y/o radioterapia [41].

El curso clínico de los linfomas MALT difiere del de otros linfomas de bajo grado. La mayoría de los estudios previos han mostrado evoluciones favorables [20, 49, 54-56]. Aproximadamente el 70% de los pacientes con linfoma MALT se presentan en

un estadio I o II de la enfermedad [41]. En cuanto al pronóstico, los linfomas MALT de parótida, en comparación con otras localizaciones extranodales de LNH, suelen ser más frecuentemente de bajo grado y presentan mejor pronóstico, con una supervivencia mayor al 80% a los 5 años [4, 31].

Thieblemont et al [55] estudiaron a 108 pacientes con linfoma MALT y observó que los pacientes con afectación no gastrointestinal (53 pacientes) parecen progresar más frecuentemente que los que presentan afectación gastrointestinal. A pesar de que varios autores [6, 56-57] demostraron el pronóstico favorable de pacientes con linfomas MALT extraintestinales, éstos presentaron mayor tasa de recaídas, incluyendo en las glándulas salivales, que los pacientes con linfomas MALT gastrointestinales o tiroideos. Tonami et observó 3 casos de linfoma MALT de glándulas salivales con síndrome de Sjögren que progresaron a otras zonas mucosas, a pesar de sufrir una remisión completa en la localización primaria al [21]. Harris comentó que la razón principal para tratar los linfomas MALT de glándula parótida es la prevención del desarrollo de linfomas de alto grado [16].

CONCLUSIONES

Los linfomas MALT de glándulas salivales son una entidad infrecuente. Su localización más habitual es la glándula parótida y su presentación indolente se mimetiza con otras tumoraciones benignas más comunes. Su diagnóstico se realiza mediante el hallazgo de lesiones quísticas difusas en el TAC y RMN. Es importante tener en cuenta la tasa alta de falsos negativos en la PAAF, por lo que nunca podremos descartar su sospecha ante resultados inespecíficos. En ocasiones, se requiere realizar parotidectomía para establecer el diagnóstico definitivo. Su tratamiento incluye la cirugía, radioterapia y/o quimioterapia, según su localización o subtipo histológico. La tasa de supervivencia es elevada.

BIBLIOGRAFÍA

1. Wotherspoon AC, Doglioni C, Diss TC, Pan L, Moschini A, de Boni M, Isaacson PG. Regression of primary low-grade B-cell gastric lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue type after eradication of *Helicobacter pylori*. *Lancet*. 1993 Sep 4;342(8871):575-7.
2. Fischbach W, Goebeler ME, Ruskone-Fourmestreaux A, Wündisch T, Neubauer A, Raderer M, Savio A; EGILS (European Gastro-Intestinal Lymphoma Study) Group. Most patients with minimal histological residuals of gastric MALT lymphoma after successful eradication of *Helicobacter pylori* can be managed safely by a watch and wait strategy: experience from a large international series. *Gut*. 2007 Dec;56(12):1685-7.
3. Liberati A, Altman DG, Tetzla J, Mulrow C, Gotzsche PC, Loannidis JP. PRISMA statement for reporting systematic reviews and meta-analyses of studies that evaluate health care interventions: explanation and elaboration. *J Clin Epidemiol* 2009; 62:1-34.
4. Vázquez A, Khan MN, Sanghvi S, Patel NR, Caputo JL, Baredes S, Eloy JA. Extranodal marginal zone lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue of the salivary glands: a population-based study from 1994 to 2009. *Head Neck* 2015;37:18-22.
5. Anacak Y, Miller RC, Constantinou N, Mamusa AM, Epelbaum R, Li Y, Calduch AL, Kowalczyk A, Weber DC, Kadish SP, Bese N, Poortmans P, Kamer S, Ozsahin M. Primary mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the salivary glands: a multicenter Rare Cancer Network study. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*. 2012 Jan 1;82(1):315-20.
6. Troch M, Formanek M, Streubel B, Müllauer L, Chott A, Raderer M. Clinicopathological aspects of mucosa-associated lymphoid tissue (MALT) lymphoma of the parotid gland: A retrospective single-center analysis of 28 cases. *Head Neck*. 2011;33:763-7.
7. Mantsopoulos K, Koch M, Fauck V, Schinz K, Schapher M, Constantinidis J, Rösler W, Iro H. Primary parotid gland lymphoma; pitfalls in the use of ultrasound imaging by a great pretender. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2021;50:573-8.
8. Zhang C, Xia R, Gu T, Wang L, Tian Z, Zhu L, et al. Clinicopathological aspects of primary mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the salivary gland: A retrospective single-center analysis of 72 cases. *J Oral Pathol Med* 2021;50:723-30.
9. Zhu L, Wang P, Yang J, Yu Q. Non-Hodgkin lymphoma involving the parotid gland: CT and MR imaging findings. *Dentomaxillofac Radiol*. 2013;42(9):20130046.
10. Isaacson P, Wright DH. Malignant lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue. A distinctive type of B-cell lymphoma. *Cancer* 1983;52:1410-6.
11. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. World Health Organization Classification of Tumours of Head and Neck. International Agency for Research on Cancer (IARC). Lyon, France. Ed. 4. 2017. pp. 347.
12. Harris NL. Lymphoid proliferations of the salivary glands. *Am J Clin Pathol* 1999;111:S94-103.
13. Joshi R, McNamara C. MALT lymphoma - Symptoms, diagnosis and treatment. *BMJ Best Practice*. Disponible en: <https://bestpractice.bmj.com/topics/en-us/878>. [Citado el 13/05/2022].
14. Ribrag V, Orphanet: Linfoma MALT. Disponible en: https://www.orpha.net/consor/cgi-bin//OC_Exp.php?lng=ES&Expert=52417. [Citado el 13/05/2022].
15. Cohen SM, Petryk M, Varma M, Kozuch PS, Ames ED, Grossbard ML. Non-Hodgkin's lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue. *Oncologist*. 2006 Nov-Dec;11(10):1100-17.
16. Vega F, Lin P, Medeiros LJ. Extranodal lymphomas of the head and neck. *Ann Diagn Pathol*. 2005;9:340-50.
17. Celedón C, Ojeda JP, Agurto M. Tumores de glándulas salivales. Experiencia de 20 años. *Rev Otorrinolaringol Cir Cab Cuello* 2002;62:255-64.
18. Boukheris H, Ron E, Dores GM, Stovall M, Smith SA, Curtis RE. Risk of radiation-related salivary gland carcinomas among survivors of Hodgkin lymphoma: a population-based analysis. *Cancer* 2008;113: 3153-9.

19. Damborenea Tajada J, García Erce JA, Castillo Fornies AC, Leache Pueyo J, Naya Gálvez MJ, Rubio Martínez A, Ortiz García A. Linfoma MALT de glándula parótida en asociación con síndrome de Sjögren. Aportación de un caso y revisión de la literatura. *Acta Otorrinolaringol Esp* 1998;49:595-8.
20. Biasi D, Caramaschi P, Ambrosetti A, et al. Mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the salivary glands occurring in patients affected by Sjogren's syndrome: report of 6 cases. *Acta Haematol.* 2001;105: 83-8.
21. Tonami H, Matoba M, Yokota H, et al. Mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma in Sjogren's syndrome: initial and follow-up imaging features. *AJR Am J Roentgenol* 2002;179(2):485-9.
22. Gorodetsky V.R., Пробатова H.A., Logvinenko O.A., Васильев В.И., Ogorodnikova M.D., Седьшев С.Х., Симонова М.В., Сафонова Т.Н., Varlamova M.Yu., Mekheda L.V., Malakhova N.V., Насонов Е.Л. Rheumatoid arthritis with Sjogren's syndrome and MALT lymphoma of the parotid gland, associated with multiple myeloma: Description of a case and review of literature. *Rheumatology Science and Practice.* 2010;48(2):103-6.
23. Wierzbicka M, Bartochowska A, Kopeć T, Szyfter W. Chłoniak typu MALT ślinianki przyusznej - opis przypadku i przegląd piśmiennictwa. *Otolaryngol Pol.* 2013;67:61-5.
24. Mada Y, Koshitsuka K, Ihara F, Ueki Y, Konno A. [A Clinical Study of a Mucosa-Associated Lymphoid Tissue (MALT) Lymphoma of Salivary Glands]. *Nihon Jibiinkoka Gakkai Kaiho.* 2015;118:25-33.
25. Tachikawa M, Yoshihara T. Four cases of MALT lymphomas of parotid gland. *J-Global.* 2015; 28(1):95-101.
26. Vissink A, van der Meij EH, Spijkervet FKL. Ontstaan van. MALT-lymfomen bij het syndroom van Sjögren [Development of MALT-lymphoma in Sjögren syndrome]. *Ned Tijdschr Tandheelkd* 2020;127:543-50.
27. Mavragani CP, Moutsopoulos HM. Sjögren syndrome. *CMAJ.* 2014 Oct 21;186(15):E579-86.
28. Fragkioudaki S, Mavragani CP, Moutsopoulos HM. Predicting the risk for lymphoma development in Sjogren syndrome: An easy tool for clinical use. *Medicine (Baltimore).* 2016 Jun;95(25):e3766.
29. Klussmann JP, Guntinas-Lichius O, Heilig B, Wagner M, Jungehülsing M, Michel O. Sjögren-Syndrom und beidseitiges MALT-Lymphom der Glandula parotis. 1999;47:637-41.
30. Teshar MS, Esteban Y, Henderson TO, Villanueva G, Onel KB. Mucosal-associated Lymphoid Tissue (MALT) Lymphoma in association with pediatric primary Sjogren syndrome: 2 cases and review. *J Pediatr Hematol Oncol* 2019;41:413-6.
31. Povlow MR, Streiff M, Madireddi S, Jaramillo C. A Primary Parotid Mucosa-Associated Lymphoid Tissue Non-Hodgkin Lymphoma in a Patient With Sjogren Syndrome. *Cureus.* 2021 Jun 16;13(6):e15679.
32. Alvi A, Johnson JT. The neck mass: a challenging differential diagnosis. *Postgrad Med* 1995;97: 87-9.
33. Dong Y, Wen F, Shi A, Guan HW, Ge Y, Jiang Y. Value of multidetector computed tomography in the diagnosis of mucosa-associated lymphoid tissue-lymphomas in the parotid gland: A case report and review of the literature. *Oncol Lett* 2014;7:781-6.
34. Xu PC, Zhou XY, Zhou C, Xuan XL, Peng ZL. [Analysis of the clinical features of mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the parotid gland]. *Lin Chung Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi.* 2017;31:61-4.
35. Vaíllo A, Gutiérrez-Martín A, Ballestín C, Ruiz-Liso JM. Marginal zone B-cell lymphoma of the parotid gland associated with epithelioid granulomas. Report of a case with fine needle aspiration. *Acta Cytol* 2004;48:420-4.
36. Som PM, Brandwein MS, Silvers A. Nodal inclusion cysts of the parotid gland and parapharyngeal space: a discussion of lymphoepithelial, AIDS-related parotid, and branchial cysts, cystic Warthin's tumors, and cysts in Sjogren's syndrome. *Laryngoscope* 1995;105:1122-8.

37. Okura M. A case of metachronous bilateral MALT lymphoma of the parotid gland. *J Oral Maxillofacial Surg.* 2010;56:18-22.
38. Suchy BH, Wolf SR. Bilateral mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the parotid gland. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;126:224-6.
39. Rosenstiel DB, Carroll WR, Listinsky CM. MALT lymphoma presenting as a cystic salivary gland mass. *Head Neck.* 2001;23:254-8.
40. Toni G, Cozzolino I, Colella G, Tirino V, Mariani P, Laino L, Ronchi A, Franco R. Extranodal B-cell marginal zone lymphoma arising in the context of a lympho-epithelial cyst of the parotid gland in a patient with clonal B-cell lymphocytosis: report of the first case. *Minerva Stomatol.* 2020 Dec 16. <https://doi.org/10.23736/S0026-4970.20.04441-6>.
41. Ando M, Matsuzaki M, Murofushi T. Mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma presented as diffuse swelling of the parotid gland. *Am J Otolaryngol.* 2005;26:285-8.
42. Baer AN, Grader-Beck T, Antiochos B, Birnbaum J, Fradin JM. Ultrasound-guided biopsy of suspected salivary gland lymphoma in Sjogren's syndrome. *Arthritis Care Res (Hoboken).* 2021;73: 849-55.
43. Muntean D, Dudea S, Lenghel M, Solomon C, Iuga T, Rotar H. Mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the parotid gland -a case report. *Med Ultrason.* 2021;23:364-6.
44. Harris NL, Jaffe ES, Diebold J, Flandrin G, Muller-Hermelink HK, Vardiman J, Lister TA, Bloomfield CD. World Health Organization classification of neoplastic diseases of the hematopoietic and lymphoid tissues: report of the Clinical Advisory Committee meeting-Airlie House, Virginia, November 1997. *J Clin Oncol.* 1999 Dec;17(12):3835-49.
45. Ciccone E, Truini M, Grossi CE. Lymphoid complement of the human salivary glands: Function and pathology. *Eur J Morphol* 1998;36(Suppl):252-6.
46. Wirth A, Mikhael NG, Aleman BMP, Pinnix CC, Constine LS, Ricardi U, Illidge TM, Eich HT, Hoppe BS, Dabaja B, Ng AK, Kirova Y, Berthelsen AK, Dieckmann K, Yahalom J, Specht L. Involved Site Radiation Therapy in Adult Lymphomas: An Overview of International Lymphoma Radiation Oncology Group Guidelines. *Int J Radiat Oncol Biol Phys.* 2020 Aug 1;107(5):909-33.
47. Yahalom J, Illidge T, Specht L, Hoppe RT, Li YX, Tsang R, Wirth A; International Lymphoma Radiation Oncology Group. Modern radiation therapy for extranodal lymphomas: field and dose guidelines from the International Lymphoma Radiation Oncology Group. *Int J Radiat Oncol Biol Phys.* 2015 May 1;92(1):11-31.
48. Jackson AE, Mian M, Kalpadakis C, Pangalis GA, Stathis A, Porro E, Conconi A, Cortelazzo S, Gaidano G, Lopez Guillermo A, Johnson PW, Martelli M, Martinelli G, Thieblemont C, McPhail ED, Copie-Bergman C, Pileri SA, Jack A, Campo E, Mazzucchelli L, Ristow K, Habermann TM, Cavalli F, Nowakowski GS, Zucca E. Extranodal Marginal Zone Lymphoma of Mucosa-Associated Lymphoid Tissue of the Salivary Glands: A Multicenter, International Experience of 248 Patients (IELSG 41). *Oncologist.* 2015 Oct;20(10):1149-53.
49. Tsang, R W, Gospodarowicz, M K, Pintilie, M, Wells, W, Hodgson, D C, Sun, A, Crump, M, Patterson, B J. Localized mucosa associated lymphoid tissue lymphoma treated with radiation therapy has excellent clinical outcome. *J Clin Oncol.* 2003;21:4157-64.
50. Jamal B. Treatment of parotid non-Hodgkin lymphoma: a meta-analysis. *J Glob Oncol* 2018; 4:1-6.
51. Logvinenko OA, Vasil'ev VI, Sedyshev SKh, Safonova TN, Rodionova EB, Kokosadze NV, Aleksandrova EN, Cherkasova MV, Radenska-Lopovok SG, Nasonov EL. [Rituximab therapy for systemic manifestations and MALT lymphomas of the parotid gland in Sjögren's disease: preliminary data]. *Ter Arkh.* 2012;84:88-96.
52. Pollard RP, Pijpe J, Bootsma H, Spijkervet FK, Kluin PM, Roodenburg JL, Kallenberg CG, Vissink A, van Imhoff GW. Treatment of mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma in Sjogren's

- syndrome: a retrospective clinical study. *J Rheumatol.* 2011;38:2198-208.
53. Shum JW, Emmerling M, Lubek JE, Ord RA. Parotid lymphoma: a review of clinical presentation and management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2014;118:e1-5.
54. Balm AJ, Delaere P, Hilgers FJ. Primary lymphoma of mucosa associated lymphoid tissue (MALT) in the parotid gland. *Clin Otolaryngol.* 1993; 18:528- 32.
55. Thieblemont C, Bastion Y, Berger F, Rieux C, Salles G, Dumontet C, Felman P, Coiffier B. Mucosa-associated lymphoid tissue gastrointestinal and nongastrointestinal lymphoma behavior: analysis of 108 patients. *J Clin Oncol.* 1997 Apr;15(4):1624-30.
56. Zinzani PL, Magagnoli M, Galieni P, Martelli M, Poletti V, Zaja F, Molica S, Zaccaria A, Cantonetti AM, Gentilini P, Guardigni L, Gherlinzoni F, Ribersani M, Bendandi M, Albertini P, Tura S. Nongastrointestinal low-grade mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma: analysis of 75 patients. *J Clin Oncol.* 1999 Apr;17(4):1254.

DEHISCENCIA DE PARED ANTERIOR DE CONDUCTO AUDITIVO EXTERNO CON AFECTACIÓN DE ARTICULACIÓN TEMPOROMANDIBULAR TRAS CIRUGÍA DE EXÓSTOSIS. DESCRIPCIÓN DE UN CASO CLÍNICO

Dehiscence of the anterior wall of the external auditory canal with involvement of the temporomandibular joint after exostosis surgery. Description of a clinical case

Minerva RODRÍGUEZ-MARTÍN ; Patricia CORRIOLS-NOVAL ; Eugenia LÓPEZ-SIMÓN ; Belén SALVATIERRA-VICARIO ; Ramón COBO-DÍAZ ; Yaiza GARCÍA-IBÁÑEZ; Yolanda LONGARELA-HERRERO

Hospital universitario Marqués de Valdecilla. Servicio de Otorrinolaringología. Santander. España.

Correspondencia: minerva.rmartin@gmail.com

Fecha de recepción: 27 de febrero de 2022

Fecha de aceptación: 3 de abril de 2022

Fecha de publicación: 28 de abril de 2022

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

RESUMEN

Introducción y objetivo: Describir la clínica de presentación y el manejo quirúrgico de una complicación infrecuente en cirugía otológica, como es la afectación de la articulación temporomandibular (ATM). **Caso:** Presentamos el caso de una paciente de 47 años intervenida de canaloplastia y estapedectomía izquierda en 2017 y dos recambios de prótesis en 2018 en el mismo oído. En el oído derecho fue intervenida de canaloplastia y posteriormente se le realizó una timpanotomía exploradora a finales de 2018. A principios de 2019, fue remitida a consultas de nuestro hospital por sospecha de otitis externa maligna. Presentaba otorrea derecha de mal manejo, otalgia ocasional y chasquidos que no habían remitido tras

tratamiento antibiótico tópico y oral y analgesia. En la otomicroscopia se observó secreciones, así como dehiscencia en suelo y pared anterior del conducto auditivo externo (CAE) derecho. Se le había realizado previamente tomografía computarizada de hueso temporal que confirmaba el defecto óseo de CAE anterior y la comunicación con la articulación temporomandibular, así como burbujas de aire sugestivas de infección hasta espacio parafaríngeo. Se completó el estudio con una gammagrafía con citrato de galio-67, concordante con la infección en dicha zona, y una resonancia magnética nuclear para valorar más detalladamente la afectación de partes blandas, en particular lo relacionado con la ATM. Tras ingreso para tratamiento antibiótico endovenoso de amplio espectro, fue necesaria reparación quirúrgica del defecto del CAE para tratamiento óptimo. La cirugía consistió en canaloplastia utilizando colgajo pediculado e injerto de cartilago y pericondrio tragal y cerclaje intermaxilar para estabilización de la ATM que se mantuvo durante dos semanas.

Resultados: En nuestro caso, a los dos meses de la cirugía los síntomas habían desaparecido. Tan solo se mantienen molestias en la ATM, compatibles con disfunción y que mejoran con la utilización de férula de Michigan. La otoscopia muestra un CAE completamente epitelizado y tímpano íntegro. Conclusiones: La fistulización de CAE-ATM es una complicación infrecuente de la cirugía otológica por canaloplastia. El tratamiento quirúrgico mediante reparación con cartilago autólogo y fijación intermaxilar es un tratamiento efectivo a corto y largo plazo.

PALABRAS CLAVE: dehiscencia de CAE; ATM; enfisema; canaloplastia; exóstosis; cirugía otológica.

SUMMARY: Introduction and objective: To describe the clinical presentation and surgical management of an infrequent complication in otological surgery such as the involvement of the temporomandibular joint (TMJ). Case: We describe a case of a 47-year-old patient who underwent canaloplasty and left stapedectomy in 2017 and two prosthesis replacements in 2018 in the same ear. She underwent canaloplasty in the right ear and subsequently underwent an exploratory tympanotomy at the end of 2018. At the beginning of 2019, she was referred to our hospital for suspected malignant external otitis. She presented poorly managed right otorrhea, occasional otalgia and clicks that had not remitted after topical and oral antibiotic treatment and analgesia. Otomicroscopy revealed secretions as well as dehiscence in the floor and anterior wall of the right external auditory canal (EAC). A computed tomography scan of the temporal bone had previously been performed, which confirmed the anterior EAC bone defect and communication with the temporomandibular joint, as well as air bubbles suggestive of infection up to the parapharyngeal space. The study was completed with a gallium-67 citrate scintigraphy, consistent with the infection in that area, and a nuclear magnetic resonance to assess in more detail the involvement of the soft tissues, particularly that related to the TMJ. After admission for broad-spectrum intravenous antibiotic treatment, surgical repair of the EAC defect was necessary for optimal treatment. The surgery consisted of canaloplasty using a pedicled flap and cartilage graft and tragal perichondrium and intermaxillary cerclage for TMJ stabilization that was maintained for two weeks. Results: In our case, two months after surgery the symptoms had disappeared. Only discomfort in the TMJ remains, compatible with dysfunction and that improves with the use of a Michigan splint. Otoscopy shows a completely epithelialized EAC and an intact eardrum. Conclusions: Fistulization of EAC-TMJ is an infrequent complication of surgery. otology by canaloplasty. Surgical treatment by autologous cartilage repair and intermaxillary fixation is an effective treatment in short and long term.

KEYWORDS: auditory canal dehiscence; TMJ; enfisema; canaloplasty; exostosis; otologic surgery.

INTRODUCCIÓN

La exostosis del conducto auditivo externo (CAE) es un sobrecrecimiento de la porción ósea del mismo de base amplia y generalmente, bilateral o múltiple. El principal desencadenante conocido es la exposición a agua fría, sobre todo en etapas de crecimiento, y, por eso, es una patología frecuente en surfistas y nadadores de agua fría [1]. Generalmente los pacientes con exóstosis suelen estar asintomáticos hasta que el sobrecrecimiento óseo reduce el diámetro del CAE a menos de 3 mm. Esto conlleva el acúmulo de cerumen y la formación de tapones que condicionan hipoacusia de transmisión y acúfenos, así como la predisposición a las otitis externas en relación directa con la exposición al agua ya comentada.

El tratamiento fundamental de las exóstosis consiste en la prevención de la exposición al agua fría para prevención y el tratamiento de las infecciones con antibiótico tópico en las fases agudas. Cuando esto no es suficiente, bien por infecciones crónicas o hipoacusia de transmisión está indicado el tratamiento quirúrgico. Esta cirugía consiste en la extirpación de la exóstosis, normalmente utilizando un abordaje transmeatal o retroauricular. Los principales riesgos quirúrgicos son el daño a la membrana timpánica o estructuras del oído medio incluido el nervio cuerda del tímpano, daño a la articulación temporomandibular (ATM), estenosis cicatricial del canal auditivo y, la más temida, la lesión del nervio facial [2].

El objetivo de nuestro estudio fue describir un caso clínico de fístula de CAE a la ATM tras cirugía de exóstosis, una complicación muy infrecuente [3], incluyendo tanto aspectos diagnósticos como la actitud terapéutica llevada a cabo.

DESCRIPCIÓN

Una mujer de 47 años diagnosticada de otosclerosis bilateral años atrás que fue intervenida en el oído izquierdo de remodelación de CAE y

estapedectomía en 2017 con posterior recambio de prótesis dos veces. En el oído derecho se sometió a una cirugía de remodelación de CAE en 2017 y una timpanotomía exploradora a finales de 2018. Dichas cirugías se realizaron en un centro distinto al nuestro por lo que desconocemos detalles del protocolo de estas.

Tras haber pasado aproximadamente dos meses de la última cirugía la paciente comenzó con otorrea derecha, chasquidos en la ATM derecha, ocasionalmente otalgia intensa y bloqueo mandibular con imposibilidad para la apertura oral. Tras varios ciclos de tratamiento antibiótico tópico y ante la ausencia de mejoría fue remitido a las consultas externas de nuestro hospital con sospecha de otitis externa maligna. En la otomicroscopia se visualizaban exudados y un área de dehiscencia en el suelo pared anterior del CAE derecho. La analítica con hemograma, bioquímica y coagulación mostraba parámetros dentro de la normalidad y en el cultivo de dicho exudado no se aislaron microorganismos. Aportaba una tomografía computerizada (TC) (Figura 1) de peñasco que ponía de manifiesto un defecto óseo en la pared anterior del CAE derecho y la comunicación con la ATM así como burbujas de aire sugestivas de infección hasta espacio parafaríngeo ipsilateral. Se ingresó a la paciente para ampliación de pruebas y tratamiento endovenoso con ceftazidima y tópico con gentamicina-dexametasona. Se completó el estudio con una RM para evaluación de la ATM y una gammagrafía ósea con TC⁹⁹ y SPECT-TC que se amplió con una gammagrafía con Galio-67. Esta última prueba mostraba un depósito intenso de los radiotrazadores compatible con inflamación-infección en el área de la dehiscencia ósea y la ATM derechas, pero sin afectación del resto de estructuras óseas del peñasco del temporal. Esto permitió descartar la otitis externa maligna como complicación asociada.

Se decidió tratamiento quirúrgico y se valoró como mejor opción la reparación de la dehiscencia del CAE mediante abordaje transmeatal fresando

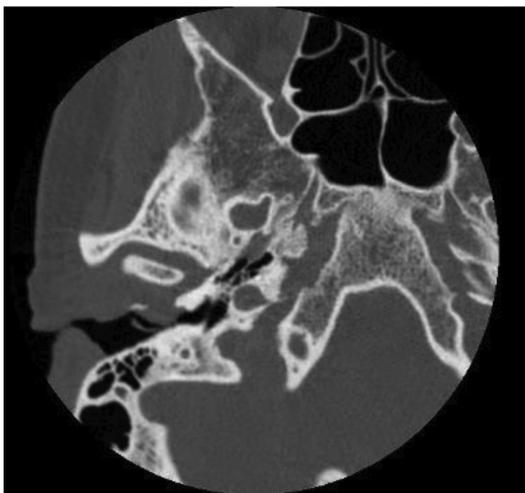


Figura 1. TC de peñascos que muestra un defecto óseo en la pared anterior del CAE derecho y la comunicación con la ATM así como burbujas de aire sugestivas de infección hasta espacio parafaríngeo ipsilateral.

espículas óseas y regularizando áreas de osteítis y sellando el defecto óseo con cartílago y pericondrio tragal y un colgajo pediculado meatal levantado previamente sobre la dehiscencia. En el mismo acto quirúrgico se realizó un bloqueo intermaxilar

para estabilizar la ATM por el Servicio de Cirugía Maxilofacial que se mantuvo dos semanas.

A los dos meses de la cirugía los síntomas habían desaparecido. Tan solo se mantuvieron molestias en la ATM, compatibles con disfunción y que mejoran con la utilización de férula de Michigan. La otoscopia mostró un CAE completamente epitelizado y tímpano íntegro.

DISCUSIÓN

La comunicación entre el CAE y la ATM es una complicación muy infrecuente, aunque descrita, tras una cirugía otológica como la canaloplastia. Otros casos están descritos en relación con una fistulización secundaria a otitis externa u otitis externa maligna, traumatismos (por ejemplo, fractura de cóndilo mandibular), colesteatoma, defecto congénito como el foramen de Huschke o tras radioterapia de cabeza y cuello. [4]

En la mayoría de los casos se trata de pacientes asintomáticos en los que no aparecen complicaciones; sin precisar tratamiento quirúrgico. Cuando aparecen síntomas, los más frecuentes son otalgia e inflamación, hipoacusia y otorrea que nos obligan a descartar infección de oído medio o externo. O incluso, puede aparecer un enfisema parafaríngeo o cervical como en el caso de nuestra paciente. Se postula que este enfisema puede ser debido a que la cápsula de ATM queda dehiscente en estos casos y se genera una presión negativa considerable dentro del espacio articular durante el deslizamiento hacia adelante del cóndilo entrando así aire en la articulación [5, 6]. En el movimiento inverso de la mandíbula, la dehiscencia se cierra generando la presión positiva requerida para que el aire no pueda salir y acaba difundándose a los planos de tejido circundantes, como el espacio parafaríngeo. La rápida resolución del enfisema quirúrgico por restricción de los movimientos de la mandíbula apoyaría esta hipótesis.

Por lo tanto, la presencia de bloqueo o chasquido mandibular y enfisema sumado al

antecedente de cirugía previa nos obliga a descartar una fistula entre el conducto auditivo externo y la articulación temporomandibular. Y, en el caso de no presentar buena evolución con manejo conservador, plantearnos el cierre de la fistula como único tratamiento definitivo para la resolución de los síntomas.

Varias opciones quirúrgicas han sido descritas para el cierre del defecto con buenos resultados por norma general. Pero dado que la concurrencia de casos no es muy elevada, no se puede establecer que técnica predomina por encima de otra.

En nuestra opinión, el cartílago y pericondrio tragal resultan relativamente fáciles y rápidos de obtener con un buen resultado para fistulas pequeñas con mínima invasión de CAE. El bloqueo intermaxilar constituye una gran ayuda para facilitar la cicatrización del injerto ya que impide el movimiento de ATM y por lo tanto también, la entrada de aire a la fosa glenoidea disminuyendo progresivamente el enfisema.

CONCLUSIONES

La canaloplastia es un procedimiento habitual en cirugía otológica que precisa de una técnica de disección meticulosa para evitar daños a estructuras importantes como el nervio facial o la ATM. La fistulización hacia la articulación temporomandibular es una complicación excepcional de esta cirugía y debemos sospecharla ante dolor persistente, otorrea, bloqueo o chasquido mandibular y, por supuesto, enfisema. En caso de lesión de la ATM, si la reparación quirúrgica esta

indicada, el uso de cartílago tragal y el bloqueo maxilar es una técnica efectiva y con buen resultado.

BIBLIOGRAFÍA

1. Wenig BM. Atlas of head and neck pathology. 3a ed. Filadelfia, PA, Estados Unidos de América: Elsevier - Health Sciences Division; 2015.
2. Roberson JB Jr, Perkins R. Canalplasty for exostoses of the external auditory canal and miscellaneous auditory canal problems. En: *Otologic Surgery*. Elsevier; 2010. p. 21–31.
3. Rodríguez-Martín M, Corriols-Noval P, López-Simón E, Salvatierra-Vicario B, Cobo-Díaz R, Longarela-Herrero Y. Dehiscencia de pared anterior de conducto auditivo externo con afectación de articulación temporomandibular tras cirugía de exóstosis: revisión sistemática de la literatura. *Rev ORL*. 2022. Disponible en: <https://doi.org/10.14201/orl.28559>
4. Jo YS, Cheong TY, Han BH, Lee JM, Kim SH, Moon IS. Temporomandibular Joint Herniation: Review of the Literature. *Otol Neurotol* [Internet]. 2020; 41(1): e1–e6. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1097/MAO.0000000000002459>
5. von Blumenthal H, Fisher EW, Adlam DM, Moffat DA. Surgical emphysema: a novel complication of aural exostosis surgery. *J Laryngol Otol* [Internet]. 1994;108(6):490–1. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1017/s0022215100127185>
6. Baxter MC, Keller M, Shah A, Wise S. Surgical emphysema following canalplasty for aural exostoses. *Otol Neurotol* [Internet]. 2017;38(8): 1174–7. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1097/mao.0000000000001512>

LINFOMA MALT DE GLÁNDULA PARÓTIDA. DESCRIPCIÓN DE UN CASO

MALT linfoma of the parotid gland. Case report

Guillermo FERNANDEZ GARCIA ; Carmen SALOM-COVENAS 

Hospital Universitario de Puerto Real. Servicio de Otorrinolaringología. Puerto Real. Cádiz. España.

Correspondencia: gfsanza@gmail.com

Fecha de recepción: 9 de febrero de 2022

Fecha de aceptación: 9 de agosto de 2022

Fecha de publicación: 10 de agosto de 2022

Fecha de publicación del fascículo: 24 de marzo de 2023

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

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

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

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

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

RESUMEN: Introducción y objetivo: El linfoma tipo MALT es un tipo de LNH relacionado principalmente con inflamación autoinmune crónica en el caso de aparición sobre glándulas salivales. Los linfomas de la glándula parótida son una entidad infrecuente. Presentamos un paciente con linfoma tipo MALT de parótida, describiendo sus métodos diagnósticos y de tratamiento más empleados. Descripción: Mujer de 69 años con tumoración asintomática en cola de parótida y visión de estructuras nodulares en imagen de TC y RM con citología por PAAF negativa. Se realiza parotidectomía total hallando el diagnóstico de linfoma MALT de la zona marginal. Se completa tratamiento mediante esquema R-CHOP durante 4 meses, sin signos de recidiva al año. Conclusiones: Los linfomas de glándulas salivales son poco habituales y ocasionalmente sufren un retraso diagnóstico debido a su comportamiento benigno que mimetiza a tumores más familiares del área parotídea. Su sospecha y distinción son esenciales y no deben olvidarse en nuestro diagnóstico diferencial de masas parotídeas.

PALABRAS CLAVE: linfoma MALT de glándula parótida; linfoma de células B monocitoides

SUMMARY: Introduction and objective: The parotid gland lymphomas are encountered unfrequently. We present a case report from a MALT lymphoma of the parotid gland, describing its most employed diagnostic and treatment strategies. Description: 69 year old woman with an asymptomatic tumor in the parotid gland tail, showing a nodular image in CT y MRI and with a negative cytology by FAAB. We perform a total parotidectomy discovering a marginal zone MALT lymphoma. We complement the treatment with r-chop chemotherapy regimen during 4 months without recurrence signs after 1 year follow up. Conclusions: The salivary gland lymphomas are a rare entity that can be easily misdiagnosed by other common benign masses. We must suspect and don't forget this entity from our differential diagnosis diagram.

KEYWORDS: MALT lymphoma; parotid gland

INTRODUCCIÓN

Los linfomas de glándulas salivales son una entidad poco común, siendo la glándula parótida su localización más frecuente [1]. Dentro de los linfomas parotídeos, el 20 % corresponde a linfomas de Hodgkin (LH) y el 80 % conforma el grupo de linfomas no Hodgkin (LNH). Dentro de este último subtipo, se encuentran los linfomas asociados a mucosas (MALT), también conocido como linfoma de células B monocitoides, siendo el subtipo más común de linfoma extranodal primario y por ende, el más frecuentemente encontrado en la glándula parótida [2]. Sin embargo, los linfomas de glándulas salivales son globalmente una entidad poco habitual y ocasionalmente se diagnostican de manera inadecuada debido a su comportamiento relativamente benigno que mimetiza a tumores más familiares del área parotídea. Presentamos un caso clínico de linfoma tipo MALT de parótida, describiendo sus métodos diagnósticos y de tratamiento más empleados.

DESCRIPCIÓN

Mujer de 69 años que consulta por tumoración parotídea izquierda de crecimiento lento de 5 meses de evolución, no dolorosa. A la palpación, se aprecia una tumoración de 2 cm a nivel de la cola parotídea, así como una tumoración de 1 cm a nivel preauricular, ambas móviles, sin estar adheridas a planos profundos ni mostrar lesión en piel subyacente. TC cervical: estructura nodular de ambas glándulas

parótidas y submaxilares observándose un nódulo de mayor tamaño en la parótida izquierda. RM parotídea: Infiltración grasa de ambas glándulas parótidas, con imágenes nodulares intraparotídeas bilaterales, que como primera posibilidad sugieren ganglios intraparotídeos, más numerosos y de mayor tamaño en la glándula izquierda (Figuras 1 y 2). No conseguimos identificar una imagen dominante con características de señal diferentes que concuerden con los datos clínicos. Citología por PAAF: ausencia de células neoplásicas, sugestiva de adenoma pleomorfo. Se decide realizar una parotidectomía total izquierda pues había múltiples adenopatías tanto en lóbulo superficial como profundo guiada con neuroestimulador, conservando en su totalidad el nervio facial. Anatomía patológica: proliferación neoplásica linfoide de patrón difuso de células pequeñas irregulares con presencia de lesión linfoepitelial y centros germinales residuales compatible con linfoma MALT de la zona marginal. Expresión intensa para CD20 con ausencia de expresión para ciclina D1, CD23, Bcl6, CD10, 30 y 15; índice proliferativo (ki67) del 20 %. El caso se consultó al servicio de Hematología, donde completó el estadiaje y se inició el tratamiento mediante esquema R-CHOP (rituximab, ciclofosfamida, hidroxidaunorrubicina, vincristina y prednisona) durante 4 meses. El control posterior en consultas y las pruebas de control mediante TAC y PET-TAC mostraron una completa resolución del proceso al finalizar el tratamiento sin recidiva al año de seguimiento.

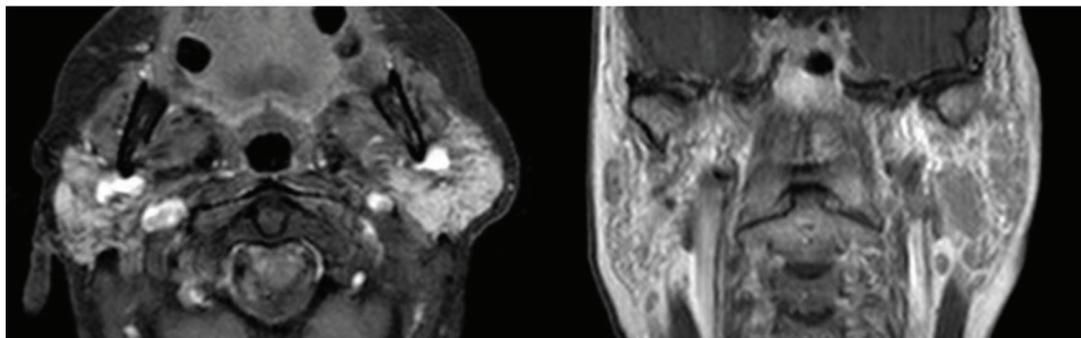


Figura 1. RM en T1 de glándulas parotídeas, planos axial (izquierda) y coronal (derecha).

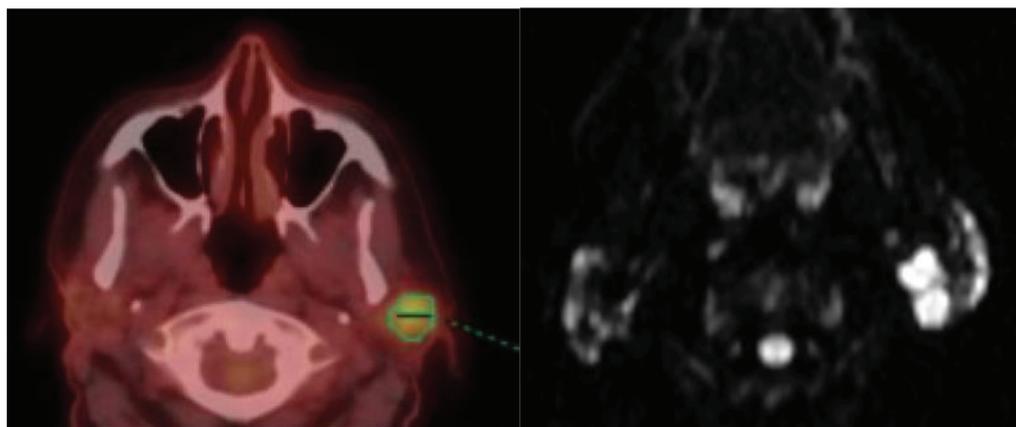


Figura 2. PET-TC (izquierda) y RM de difusión (derecha).

DISCUSIÓN

Los linfomas abarcan un heterogéneo grupo de tumores que nace de los sistemas reticuloendotelial y linfático y se originan principalmente en los nódulos linfáticos. Los tipos principales son linfoma de Hodgkin (LH) y linfoma no Hodgkin (LNH). Los linfomas derivados del tejido linfoide asociado a mucosas (MALT) se engloban dentro de los LNH, y fueron descritos inicialmente por Isaacson and Wright en 1983 [3].

Representa alrededor del 5-7.6 % de los LNH diagnosticados y es el subtipo más común de linfomas extranodales [4].

Su incidencia anual se estima en alrededor de 1/313.000 habitantes. Afecta mayoritariamente a personas de más de 60 años, con una ligera predominancia femenina en una proporción 1,5:1; como en nuestro caso descrito. Es muy poco frecuente en niños [5].

El estómago es la localización más frecuente de los linfomas tipo MALT (detectado hasta en un 90 % de casos), aunque puede abarcar potencialmente cualquier localización que albergue linfocitos B; describiéndose en glándulas salivales, tiroides, pulmón, anexos oculares, timo, mama, riñón... [6].

El área de cabeza y cuello representa el 34 % de los casos extraintestinales, localizándose en

orden de frecuencia en el anillo de Waldeyer, senos paranasales y las glándulas salivales [7].

La localización más habitual es la glándula parótida con 75 % de los casos, seguida de la submaxilar (23 %) y la sublingual (1 %) [8]. Los linfomas más comunes dentro de las glándulas salivales mayores son, en orden de frecuencia, el linfoma difuso de células grandes, el linfoma folicular y el linfoma tipo MALT, el cual abarca un 7.6 % del total de LNH.

La íntima asociación entre el linfoma tipo MALT y condiciones infecciosas/inflamatorias crónicas han sido bien establecidas en el caso de infección por *Helicobacter pylori* y su localización en el estómago [9,10]. Sin embargo, su etiología ha sido menos estudiada y corroborada en apariciones extraestomacales. Las glándulas salivales no presentan tejido tipo MALT, aunque se postula que puede adquirirse como resultado de una inflamación autoinmune crónica, siendo el síndrome de Sjögren la entidad más frecuentemente encontrada (78 %) [11].

Al igual que la mayoría de las tumoraciones benignas parotídeas, se presentan como una tumoración asintomática e inespecífica de crecimiento lento, que, sin embargo, muestra afectación multifocal sincrónica en el 50 % de los casos.

Las pruebas de imagen más empleadas son la TAC con contraste y la RM, sin evidencia de superioridad clara entre ambas. Muestran frecuentemente una lesión localizada o difusa en la glándula acompañada de múltiples quistes, que probablemente representan dilataciones focales de los ductos salivales producidos por la compresión de conductos terminales por los linfocitos neoplásicos. Estos quistes pueden asociar calcificaciones, probablemente resultado de lesiones inflamatorias, sin existir hallazgos patognomónicos [12]. La PET se muestra especialmente útil en el rastreo de formas multifocales, la detección de lesiones ocultas en áreas marginales de la parótida y el seguimiento posquirúrgico.

El diagnóstico por imagen es comparable con la citología en discernir lesiones benignas de

malignas. Además, el uso de la PAAF presenta una tasa del 32 % de falsos negativos, como ocurre en nuestra paciente; por lo que no se realiza de manera habitual [13]. Histológicamente muestra infiltrado de macrófagos y células plasmáticas, las cuales se presentan como linfocitos de gran citoplasma y núcleos irregulares, con destrucción parcial de la anatomía del parénquima glandular [14].

La parotidectomía se recomienda en tumores de localización única, aunque varios autores recomiendan la asociación con quimioterapia y/o radioterapia para evitar un mayor riesgo de recidiva. Su recurrencia es mayor que en los linfomas MALT gástricos, presentando tasas de hasta un 30 % en 5 años [15]. Es por ello que en casos diseminados o tras resecciones incompletas si se indica de manera uniforme el empleo de quimioterapia y/o radioterapia [3].

Su pronóstico es bueno, con una supervivencia mayor al 80 % a los 5 años [16].

CONCLUSIONES

Los linfomas de glándulas salivales son una entidad infrecuente. Su localización más habitual es la glándula parótida y su presentación indolente se mimetiza con otras tumoraciones benignas más comunes. Su diagnóstico se diferencia mediante el hallazgo de lesiones quísticas difusas en TC y RM y su tratamiento se aborda desde la cirugía, radioterapia y/o quimioterapia, según su localización, presentando buena tasa de supervivencia.

BIBLIOGRAFÍA

1. Fernández A F, Espinoza N C, Mercado M V, Vallejos A H. Linfoma MALT de parótida, presentación de un caso clínico y revisión del tema. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2012;72(1): 79-86.
2. Dong Y, Wen F, Shi A, Guan HW, Ge Y, Jiang Y. Value of multidetector computed tomography in the diagnosis of mucosa-associated lymphoid tissue-lymphomas in the parotid gland: A case

- report and review of the literature. *Oncol Lett*. 2014;7(3):781-6.
3. Isaacson P, Wright DH. Malignant lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue. A distinctive type of B-cell lymphoma. *Cancer* 1983;52:1410-6.
 4. Joshi R, McNamara C. MALT lymphoma - Symptoms, diagnosis and treatment. *BMJ Best Practice*. Última revisión en 2020. Disponible en: <https://bestpractice.bmj.com/topics/en-us/878>
 5. Ribrag V. Linfoma MALT. Última actualización: Marzo 2010. Disponible en: Orphanet, <https://www.orpha.net/consor/cgi-bin/index.php>
 6. Cohen SM, Petryk M, Varma M, Kozuch PS, Ames ED, Grossbard ML. Non-Hodgkin's lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue. *Oncologist*. 2006;11(10):1100-17.
 7. Vega F, Lin P, Medeiros LJ. Extranodal lymphomas of the head and neck. *Ann Diagn Pathol* 2005;9(6):340-50.
 8. Celedón C, Ojeda JP, Agurto M, Olavarría C, Paredes A, Niklischek E et al. Tumores de glándulas salivales. Experiencia de 20 años. *Rev Otorrinolaringol Cir Cab. Cuello* 2002;62: 255-64.
 9. Wotherspoon AC, Doglioni C, Diss TC, Pan L, Moschini A, de Boni M et al. Regression of primary low-grade B-cell gastric lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue type after eradication of *Helicobacter pylori*. *Lancet*. 1993;342(8871):575-7.
 10. Fischbach W, Goebeler ME, Ruskone-Fourmes-traux A, Wündisch T, Neubauer A, Raderer M, Savio A; EGILS (European Gastro-Intestinal Lymphoma Study) Group. Most patients with minimal histological residuals of gastric MALT lymphoma after successful eradication of *Helicobacter pylori* can be managed safely by a watch and wait strategy: experience from a large international series. *Gut*. 2007;56(12):1685-7.
 11. Wöhrer S, Troch M, Streubel B, Zwerina J, Skrabs C, Formanek M, Hauff W, Hoffmann M, Müllauer L, Chott A, Raderer M. MALT lymphoma in patients with autoimmune diseases: a comparative analysis of characteristics and clinical course. *Leukemia*. 2007;21(8):1812-8.
 12. Zhu L, Wang P, Yang J, Yu Q. Non-Hodgkin lymphoma involving the parotid gland: CT and MR imaging findings. *Dentomaxillofac Radiol*. 2013;42(9):20130046.
 13. Urquhart A, Hutchins Jg, Berg Rl. Preoperative computed tomography scans for parotid tumor evaluation. *Laryngoscope* 2001;111(11 Pt 1): 1984-8.
 14. Bacon C, DU MQ, Dogan A. Mucosa-associated lymphoid tissue (MALT) lymphoma: a practical guide for pathologists. *J Clin Pathol* 2007;60:361-72.
 15. Wenzel C, Fiebiger W, Dieckmann K, Formanek M, Chott A, Raderer M. Extranodal marginal zone B-cell lymphoma of mucosa-associated lymphoid tissue of the head and neck area: high rate of disease recurrence following local therapy. *Cancer*. 2003;97(9):2236-41.
 16. DI-Palma S, Simpson RHW, Skalova A, Leivo I. Major and Minor Salivary Glands. En: Cardesa, A., Sliotweg, P.J. (eds) *Pathology of the Head and Neck*. Springer, Berlin, Heidelberg, 2006; Ch.5: 154-5.

