

Revista ORL

e-ISSN: 2444-7986 - DOI: https://doi.org/10.14201/orl.2021123 CDU: 616.2 - IBIC: Otorrinolaringología (nariz, garganta, oídos) [MJP] - BIC: Otorhinolaryngology [ENT] - BISAC: Medical / Otorhinolaryngology [MED066000]

VOL. 12, N. 3, 2021

EDICIONES UNIVERSIDAD DE 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

Revista ORL

e-ISSN: 2444-7986 - DOI: https://doi.org/10.14201/orl.2021123 CDU: 616.2 -IBIC: Otorrinolaringología (nariz, garganta, oídos) [MJP] - BIC: Otorhinolaryngology [ENT] - BISAC: Medical / Otorhinolaryngology [MED066000]

VOL. 12, N. 3, 2021

EDICIONES UNIVERSIDAD DE SALAMANCA

ÍNDICE

ARTÍCULO ORIGINAL	
Análisis de los factores de riesgo y del seguimiento de la hipoacusia de inicio tardío durante	
25 años de cribado auditivo	
José Ignacio BENITO-OREJAS; Jesús Eduardo RAMÍREZ-SALAS; Patricia VIVEROS-DÍEZ;	
Victoria DUQUE-HOLGUERA; Beatriz RAMÍREZ-CANO; Darío MORAIS-PÉREZ	197
Incidencia y factores de riesgo en la ototoxicidad por cisplatino	
José Ignacio BENITO-OREJAS; Ana SÁNCHEZ-MARTÍNEZ; Juan José TAVÁREZ-RODRÍGUEZ;	
Darío MORAIS-PÉREZ; Diego SOTO-PRADO; María Fe MUÑOZ-MORENO	217
Repercusión del acúfeno en pacientes con enfermedad de Ménière	
Estela Cristina PRIETO-MAILLO; Sofía FERREIRA-CENDÓN; María José FERNÁNDEZ-NAVA;	
Ramón Antonio MARTÍNEZ-CARRANZA; José Carlos GÓMEZ-SÁNCHEZ; Ángel BATUECAS-CALETRÍO	231
Ramon Antonio MARTINEZ-CARRANZA; Jose Carios GOMEZ-SANCHEZ; Angel DATUECAS-CALETRIO	
Pérdida de audición tras gentamicina intratimpánica en la Enfermedad de Ménière. Estudio retrospectivo	
Cristina Villaoslada-Fuentes; María José FERNÁNDEZ-NAVA; Sofía FERREIRA-CENDÓN;	
Rosana VILLAOSLADA-FUENTES; Hortensia SÁNCHEZ-GÓMEZ; Ángel BATUECAS-CALETRÍO	243
Rehabilitación vestibular en pacientes con vértigo y trastorno de la personalidad	
Ana GUTIÉRREZ-GALLARDO; Carmen SALOM-COVEÑAS; Eulalia Carmen PORRAS-ALONSO	253
This do Historia di California di California del Fisco, Summi di California di Califor	
ARTÍCULO DE REVISIÓN	
Cuerpo extraño en seno frontal. Revisión sistemática	
Mahomed Sidique Abdul Cadar DADÁ; Zulaikhah Mahomed Sidique DADÁ; Abdul Habib Mahomed DADÁ	261
Troub Maiorica DADA	
Tratamiento de la disfagia en la distrofia muscular oculofaríngea. Revisión sistemática	
Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ; Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS; Sofía VALLE-OLSEN,	
Jesús VERGE-GONZÁLEZ; José Antonio PÉREZ-ARCOS	267
CASO CLÍNICO	
Cuerpo extraño en seno frontal. Caso clínico	
Mahomed Sidique Abdul Cadar DADÁ, Abdul Habib Mahomed DADÁ	277

[III]

Revista ORL

e-ISSN: 2444-7986 - DOI: https://doi.org/10.14201/orl.2021123 CDU: 616.2 –IBIC: Otorrinolaringología (nariz, garganta, oídos) [MJP] – BIC: Otorhinolaryngology [ENT] – BISAC: Medical / Otorhinolaryngology [MED066000]

VOL. 12, N. 3, 2021

EDICIONES UNIVERSIDAD DE SALAMANCA

TABLE OF CONTENTS

ORIGINAL	
Analysis of risk factors and targeted surveillance for postnatal hearing loss during	
25 years of hearing screening	
José Ignacio BENITO-OREJAS; Jesús Eduardo RAMÍREZ-SALAS; Patricia VIVEROS-DÍEZ;	
Victoria DUQUE-HOLGUERA; Beatriz RAMÍREZ-CANO; Darío MORAIS-PÉREZ	197
Incidence and risk factors of cisplatin-induced ototoxicity	
José Ignacio BENITO-OREJAS; Ana SÁNCHEZ-MARTÍNEZ; Juan José TAVÁREZ-RODRÍGUEZ;	
Darío MORAIS-PÉREZ; Diego SOTO-PRADO; María Fe MUÑOZ-MORENO	217
Impact of Tinnitus in Patients with Ménière's Disease	
Estela Cristina PRIETO-MAILLO; Sofía FERREIRA-CENDÓN; María José FERNÁNDEZ-NAVA;	
Ramón Antonio MARTÍNEZ-CARRANZA; José Carlos GÓMEZ-SÁNCHEZ; Ángel BATUECAS-CALETRÍO	231
Handa lass often intertrumenta contemisio in Ménière disease Detrooperative et de	
Hearing loss after intratympanic gentamicin in Ménière's disease. Retrospective study Cristina Villaoslada-Fuentes; María José FERNÁNDEZ-NAVA; Sofía FERREIRA-CENDÓN;	
Rosana VILLAOSLADA-FUENTES; Hortensia SÁNCHEZ-GÓMEZ; Ángel BATUECAS-CALETRÍO	243
Vestibular rehabilitation in patients with vertigo and personality disorder	
Ana GUTIÉRREZ-GALLARDO; Carmen SALOM-COVEÑAS; Eulalia Carmen PORRAS-ALONSO	253
REVIEW	
Frontal sinus foreign body. A systematic review	
Mahomed Sidique Abdul Cadar DADÁ; Zulaikhah Mahomed Sidique DADÁ;	
Abdul Habib Mahomed DADÁ	261
Treatment of Dysphagia Oculopharyngeal muscular dystrophy. Systematic review	
Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ; Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS; Sofía VALLE-OLSEN,	
Jesús VERGE-GONZÁLEZ; José Antonio PÉREZ-ARCOS	267
Jesus V ERGE-GOIVEALLE, Jose Antonio I ERLE-ARCOS	
CASE REPORT	
Foreign body in frontal sinus. Case report Mahomed Sidique Abdul Cadar DADÁ Abdul Habib Mahomed DADÁ	277
Manomed Natique Abdult adar DADA Abdul Habib Mahomed DADA	277

[IV]

ARTÍCULO ORIGINAL

ANÁLISIS DE LOS FACTORES DE RIESGO Y DEL SEGUIMIENTO DE LA HIPOACUSIA DE INICIO TARDÍO DURANTE 25 AÑOS DE CRIBADO **AUDITIVO**

Analysis of risk factors and targeted surveillance for postnatal hearing loss during 25 years of hearing screening

José Ignacio BENITO-OREJAS; Jesús Eduardo RAMÍREZ-SALAS; Patricia VIVEROS-DÍEZ; Victoria DUQUE-HOLGUERA; Beatriz RAMÍREZ-CANO; Darío MORAIS-PÉREZ

Servicio de Otorrinolaringología y Patología Cervicofacial. SACYL. Hospital Clínico Universitario. Valladolid. España.

Correspondencia: jbenitoorejas@gmail.com

Fecha de recepción: 10 de octubre de 2020 Fecha de aceptación: 31 de octubre de 2020 Fecha de publicación: 7 de noviembre de 2020

Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

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: En 1972 el Joint Committee on Infant Hearing (JCIH) de EE. UU., propone la evaluación audiológica precoz de los niños que nacen con determinados factores de riesgo (FR), al comprobarse que asocian hipoacusia con mayor frecuencia. Tras hacerse realidad el cribado auditivo universal, se sigue indicando la conveniencia de un seguimiento de los recién nacidos (RN) con FR de hipoacusia permanente posnatal o de inicio tardío (HPP). Material y métodos: Tras aplicar durante 25 años un programa de cribado auditivo neonatal, en el Hospital Clínico Universitario (HCU) de Valladolid (España), hemos analizado la incidencia de los FR y el rendimiento obtenido con el seguimiento de los niños que presentaban FR de hipoacusia tardía al nacimiento. Resultados: De los 27.649 RN evaluados, detectamos un 0,25 por mil de HPP, que representa el 8% de las hipoacusias congénitas y el 0,65% de los RN con FR. En nuestro medio, los FR con mayor prevalencia de HPP son, los antecedentes familiares de hipoacusia y la presencia de malformaciones

[197]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

o síndromes que asocian hipoacusia. La HPP es fundamentalmente bilateral, de tipo neurosensorial y en un elevado porcentaje (23%) de grado leve. Discusión y Conclusiones: El seguimiento de los factores de riesgo propuestos por el JCIH como indicadores de HPP, no resulta ni eficaz ni económicamente rentable; sin embargo, dada la importancia de la HPP, consideramos que en el momento actual debería mantenerse el de aquellos FR que tengan una prevalencia elevada de hipoacusia y dado que, la mitad de las hipoacusias posnatales no asocian FR, añadir a este seguimiento, la realización de un estudio neonatal de pruebas genéticas de hipoacusia junto al análisis de la presencia de citomegalovirus.

PALABRAS CLAVE: Cribado auditivo neonatal; hipoacusia; factor de riesgo; vigilancia; recién nacido; niño

SUMMARY: Since 1972, the Joint Committee on Infant Hearing (JCIH) in the USA has proposed the early audiological evaluation of every children born with certain risk factors (RF), because of these RF have been associated frequently with hearing loss. After universal hearing screening became a reality, it was also indicated that newborns with permanent postnatal or delayed-onset hearing loss (DH) RF should be followed. Methods: The results obtained after 25 years of application of a neonatal auditory screening program at the HCU in Valladolid (Spain) are analyzed, looking for the performance obtained with the follow-up of children with RF of DH. Results: We evaluated 27,649 newborns and detected 0.25 per thousand with DH. This represents 8% of congenital hearing loss and 0.65% of newborns with RF. The family history of hearing loss and the presence of malformations or syndromes that associate hearing loss are in our environment the RF with higher prevalence of DH. DH usually is bilateral and neurosensorial, with a high percentage (23%) of mild degree. Discussion/Conclusions: The monitoring of risk factors proposed by the JCIH as DH indicators is neither effective nor economically profitable. Given the importance of DH, we consider that the follow-up of children with high prevalence of RF should be maintained, in addition to this, we realized that half of them have not associate RF, for this reason, we think that a neonatal study of genetic tests for hearing loss should be carried out together with citomegalovirus screening.:

KEYWORDS: Newborn hearing screening; hearing loss; risk factor; surveillance; newborn; children

INTRODUCCIÓN

Teniendo en cuenta las importantes repercusiones de la hipoacusia en la infancia y las posibilidades terapéuticas que ofrece la intervención temprana, en 1972 el Joint Committee on Infant Hearing (JCIH) de EE. UU. [1], propuso la evaluación audiológica precoz de los niños que tuvieran determinados factores de riesgo (FR), al comprobarse que asociaban hipoacusia con mayor frecuencia. Y aunque se tenía conciencia de la ventaja que suponía para el pronóstico la instauración de un tratamiento temprano, se carecía de la capacidad necesaria para llevar a cabo un cribado poblacional. A los 5 indicadores iniciales, se añadieron otros 2 en 1982 [2], reconociéndose también la necesidad de vigilar a determinados niños que presentaban una mayor probabilidad de desarrollar hipoacusia de inicio tardío, pero sin que se estableciera una periodicidad para revisarles. Hubo nuevas modificaciones a esta lista en 1990 y 1994 [3-4], fruto de diferentes estudios multicéntricos, como el llevado a cabo en nuestro país [5]. Estos niños con FR de hipoacusia sólo representaban un pequeño porcentaje (variable del 2,4 al 13%) [4, 6-7] del total de recién nacidos (RN), lo que hacía posible, en cuanto a tiempo, aplicar la prueba diagnóstica de potenciales evocados auditivos del tronco cerebral (PEATC) como prueba de cribado. Guiados por estas recomendaciones iniciamos en 1994 en el HCU de Valladolid (VA), un protocolo para la detección precoz de la hipoacusia en RN con FR, utilizando la otomicroscopia, la impedanciometría y los PEATC, como instrumentos de cribado [8-9].

[198]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

Pero el avance tecnológico permitió pocos años después, con el aval de todos los organismos nacionales [7] e internacionales [4, 10], la introducción y uso clínico de las otoemisiones acústicas (OEA) y de los PEATC-A (PEATC automáticos) como pruebas que hacían posible el cribado auditivo universal, que iniciamos en nuestro Servicio en el año 2001 [11]. Junto a la expansión y los buenos resultados de este cribado auditivo universal, en las propuestas del JCIH del año 2000 [10] se indicaba también de manera explícita, la necesidad de seguir a los niños con factores de riesgo de hipoacusia permanente posnatal o de inicio tardío (HPP), mediante una evaluación auditiva cada 6 meses hasta la edad de 3 años; sugerencia que nosotros asumimos y hemos mantenido hasta la actualidad. En las últimas recomendaciones del 2007, el JCIH recompone de nuevo estas indicaciones, con una única lista de FR, donde se especifican los que se considera que incrementan el riesgo de HPP [12] y modifica la forma de llevar a cabo el seguimiento, al estimarse que el referido en el 2000, podía generar una carga. excesiva, tanto para los centros audiológicos como para las familias, además de un importante coste económico. Se propone entonces, un control auditivo y general por parte de los pediatras de atención primaria, una evaluación audiométrica entre los 24 y 30 meses de quienes fueran portadores de FR de HPP y un control audiológico más cercano de aquellos FR donde la literatura ofreciera suficiente evidencia de presentar una mayor prevalencia de hipoacusia, como la terapia con oxigenación de membrana extracorpórea (ECMO) o la infección congénita por citomegalovirus (CMV) [13-14].

Se define la hipoacusia permanente como aquella hipoacusia neurosensorial o de conducción de naturaleza estructural y persistente durante 6 meses o más [15]. Es congénita o de inicio temprano, si se diagnostica al nacimiento o en los 3 primeros meses de vida [12] y es tardía si aparece a partir de los 3 meses de edad, después de pasar el cribado universal [16].

El origen de la HPP se debe a diferentes circunstancias, tales como determinadas condiciones médicas al nacer (infección por CMV, ECMO...), que pueden generar hipoacusia después de los 3 primeros meses de vida; o bien a mutaciones genéticas, síndromes o procesos neurodegenerativos que conduzcan a una hipoacusia progresiva, que se hace evidente al cabo de un tiempo y finalmente, puede ser causada por una agresión externa sobre el oído interno del niño (ototóxicos, meningitis...) provocando una hipoacusia adquirida [17].

Pero, ¿cuál es el porcentaje de niños que desarrolla una HPP? y ¿bastaría con el seguimiento de los FR indicados, para detectar la mayor parte de HPP? [18]. No hay un único valor de prevalencia de la HPP, variable entre el 0,2 por mil RN [17, 19-20] al 1 por mil [21], lo que significa que del 35 al 50% de las hipoacusias presentes a los 9 años, son posnatales, o lo que es lo mismo, que la prevalencia de la HPP es, para algunos, similar a la de la hipoacusia congénita [22].

Desde la propuesta del JCIH, 2000 [10], ha habido un continuo debate respecto al uso de los FR en el seguimiento de la HPP [17, 18, 23, 24], porque el registro de FR combinado con la monitorización pediátrica y parental se ha mostrado ineficaz en el diagnóstico de la HPP, dado el importante número de niños que desarrollan hipoacusia posnatal sin factores de riesgo [17, 22, 25], la falta de cooperación de los padres en transmitir los FR y en atender a las citas [18, 26] y las dificultades que implica el seguimiento audiológico infantil [27]. Pero la presencia de estos inconvenientes no resta importancia a la necesidad de monitorizar la hipoacusia posnatal, aunque quizá se deban buscar otros procedimientos más eficaces.

El objetivo de este trabajo, a partir de los resultados obtenidos tras aplicar durante 25 años en el HCU de Valladolid (España) un programa de cribado auditivo neonatal ha consistido en analizar la incidencia de los FR detectados y en mostrar el rendimiento obtenido con el seguimiento de los niños que presentaban factores de riesgo de

[199]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

hipoacusia posnatal, según las recomendaciones establecidas por el *Joint Committee on Infant Hearing*.

MATERIAL Y MÉTODO

La detección de la hipoacusia neonatal se ha ido modificando en nuestro medio, en función de los avances acaecidos a lo largo del tiempo. Durante el período comprendido entre octubre de 1994 y marzo del 2001, aplicamos un cribado de alto riesgo, evaluando a todos los RN con factores de riesgo de hipoacusia remitidos por el Servicio de Neonatología del HCU de VA y a los niños enviados a nuestras consultas por sospecha de hipoacusia. Aplicamos los indicadores de alto riesgo auditivo publicados por el JCIH en 1990 y 1994 [3-4], junto con las recomendaciones de la Comisión para la Detección Precoz de la Hipoacusia (CODEPEH), 1997 [28]. La exploración se realizó mediante PEATC diagnóstico con sueño natural o sedación (aprox. 1 hora de duración), previa comprobación de una exploración otomicroscópica y timpanométrica normales.

Desde marzo del 2001 a agosto del 2004 estudiamos a todos los RN del HCU de VA y de los hospitales privados dependientes del nuestro, con un protocolo de cribado auditivo con 2 fases de otoemisiones acústicas transitorias (OEAT), siguiendo las indicaciones establecidas por el Consenso Europeo de 1998 [29]; la Academia Americana de Pediatría (AAP), 1999 [30]; la CODEPEH, 1999 [7] y el JCIH, 2000 [10].

En septiembre del 2004 iniciamos en la Comunidad de Castilla y León un Programa de Detección Precoz y Atención Integral de la Hipoacusia Infantil [31] mediante la aplicación de 2 fases de potenciales evocados auditivos del tronco cerebral automáticos (PEATC-A), que mantenemos en la actualidad. Para este trabajo sólo contabilizaremos los resultados obtenidos hasta diciembre del 2019.

Durante el periodo de cribado universal con OEAT y PEATC-A (2001 a 2019), hemos ido almacenando en una base de datos *Microsoft Access* todas

las hipoacusias diagnosticadas, tanto las procedentes del cribado, como las que venían por sospecha de hipoacusia u otros síntomas; y todas aquellas, que acudieron a nuestro centro para corroborar el diagnóstico. El grado de hipoacusia de acuerdo a la BIAP [32], se clasifica en leve (21-40 dB HL), moderado (41 a 70 dB HL), severo (71 a 90 dB HL) y profundo (> 90 dB HL), subdividiendo en dos categorías al grado moderado y severo y en 3 al profundo. También hemos registrado los FR de los niños evaluados y citado en consulta a los que, siendo pasa en el cribado, presentaban alguno de los FR de hipoacusia posnatal, expresados en el documento del JCIH, 2000 [10]. Las citaciones de los niños en seguimiento por FR se realizaban hacia los 3 meses de edad (corregida por prematuridad), al año, 2 años y 3 años de vida. En la primera visita, hacia los 3 meses de edad, recogíamos en una historia clínica los antecedentes familiares y personales relacionados con los FR de hipoacusia y tras registrar la evolución general, realizábamos una exploración con otomicroscopia, timpanometría y OEAT. Esta exploración la repetíamos en cada una de las 3 visitas posteriores. A partir de 2007 (inicio del cribado con PEATC-A) adelantamos la revisión del primer año a los 8-10 meses de edad, para realizar una audiometría conductual. A los 3 años, si los hitos del desarrollo se encontraban dentro de los patrones propios de la edad y la exploración clínica y electrofisiológica auditiva eran normales, se daba el alta, indicando a la familia continuar con el seguimiento auditivo, junto al realizado por su pediatra. Si en el transcurso de esta evolución aparecía otitis media serosa (OMS) o cualquier otra alteración en la exploración, las citas se fijaban en función de la patología, hasta su resolución.

A fin de disponer de los datos de seguimiento de los niños con FR de HPP, desde el año 2007, fuimos introduciendo en otra base de datos *Microsoft Access* a aquellos con FR de hipoacusia tardía que acudían al menos a la segunda cita de seguimiento, en la que les efectuábamos una prueba de audiometría conductual.

BENITO-OREJAS J I ET AL.

Finalmente, para conocer el número y características de los niños diagnosticados con hipoacusia posnatal, hemos realizado un doble análisis:

- A partir del inicio del cribado auditivo universal, analizamos la base de datos de hipoacusia y la del seguimiento de niños con FR, para localizar las HPP que hubieran sido cribadas en el hospital. No consideramos las hipoacusias tardías detectadas durante el cribado de alto riesgo, porque, como vimos en nuestros resultados, un importante porcentaje de FR no se consideraron al nacimiento, no realizándoseles pruebas de cribado y por tanto, desconociendo si la hipoacusia se desarrolló posnatalmente, o ya estaba presente en el momento de nacer.
- Dado que el HCU de VA es centro de referencia para el diagnóstico de la hipoacusia infantil, hemos podido seleccionar a los nacidos a partir del 1-10-2004 (fecha en la que comienza el cribado universal con PEATC-A en la Comunidad de Castilla y León), que fueron pasa en el cribado auditivo de sus respectivas provincias de nacimiento de esta Comunidad y acudían para verificar un diagnóstico tardío de hipoacusia.

RESULTADOS

La Tabla 1 muestra el resultado numérico del cribado de alto riesgo (1994-2001) y del universal con OEAT (2001-2004) y con PEATC-A (2004-2019). En trabajos previos, se especifica la metodología y el análisis pormenorizado del cribado de alto riesgo [8-9], con OEAT [11, 33] y con PEATC-A [34].

Durante los 6 años y medio de cribado de alto riesgo hemos estudiado, mediante un protocolo de PEATC diagnóstico, a 240 niños, de los que tan sólo nos fueron remitidos de pediatría con FR el 1,05% de los RN vivos (84 niños) y 156 acudieron por sospecha de hipoacusia. De los 240 niños, 162 tenían finalmente FR y de las 67 hipoacusias diagnosticadas, 32 se asociaban a FR (47,8%).

En los últimos 15 años hemos aplicado un protocolo de cribado universal, 3 años y medio con OEAT y el resto con PEATC-A. Hemos evaluado a 27.649 niños en total, de los que un 3,14 por mil tenía hipoacusia (17 en el periodo de OEAT y 70 en el de PEATC-A). En un 1,3 por mil, la hipoacusia era neurosensorial severa/profunda bilateral (HNSPB) (12 en el periodo de OEAT y 24 en el de PEATC-A). Un 3,84% de los RN presentaba FR, de los que el 5,17% tenía hipoacusia (frente al 1,2 por mil de los RN con hipoacusia, pero sin FR). En nuestra población, destaca el alto porcentaje de hipoacusia congénita detectada en la etnia gitana (25,3% del total de hipoacusias aparecen en etnia gitana y un 1,7% de los RN evaluados de etnia gitana, tienen hipoacusia).

Análisis de los factores de riesgo

Hemos estudiado los FR del primer periodo (cribado alto riesgo) y del segundo (cribado con OEAT), pero no del tercero (con PEATC-A), pues, aunque registrábamos el número de niños nacidos con FR, utilizábamos un programa común a toda la Comunidad de Castilla y León [31], donde el listado de los factores se modificó en varias ocasiones, por lo que los resultados resultaban imprecisos.

En el periodo de cribado de alto riesgo, aplicamos el listado de FR del JCIH de 1994 [4]. Eran 162 pacientes con FR, con una media de 1,7 factores por niño y en las 20 HNSPB, la media era de 1,2 FR. En la Tabla 2 se muestra la frecuencia e índice de patogenicidad de los FR registrados. En el periodo de cribado universal con OEAT, utilizamos el listado de FR del JCIH 2000 [10]. Incluyendo a los niños que, procedentes de hospitales privados, cribamos durante este periodo, 264 tenían FR, con una media de 1,5 FR por niño. En la Tabla 3 se muestra el número de cada uno de los FR registrados y el índice de patogenicidad correspondiente.

Los FR más frecuentes durante el cribado de alto riesgo y el universal con OEAT (Tablas 2 y 3) fueron

[201]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

Tabla 1. Se expresa el número y el porcentaje de los resultados obtenidos en cada periodo de cribado, según fuera de alto riesgo o universal, con OEAT o con PEATC-A.

	CRIBADO DE ALTO RIESGO	CRIBADO UNIVERSAL CON OEAT	CRIBADO UNIVERSAL CON PEATC-A	CRIBADO UNIVERSAL (TOTALES)
Período de estudio	octubre 1994 a febrero 2001	marzo 2001 a agosto 2004	septiembre 2004 a diciembre 2019	marzo 2001 a diciembre 2019
RN vivos	7.996	4.568	23.190	27.758
RN evaluados	240 84 FR (1,05 % de RN) y 156 SH	4.509 (98,7%)	23.140 (99,8%)	27.649 (99,6%)
RN con FR	84 (1,05%)	167 (3,7%)	896 (3,87%)	1.063 (3,84%)
N.º Hipoacusias	14 (16% de los RN con FR y 1,7 por mil del total de RN)	17 (3,8 por mil RN)	70 (3,02 por mil RN)	87 (3,14 por mil RN) (63,2% con FR)
Género		9 v y 8 m	47 v y 23 m	56 v (64%) y 31 m (36%)
N.º HNSPB		12 (70,5%) (2,7 por mil RN)	24 (34,3%) (1,04 por mil RN)	36 (41,4%) (1,3 por mil RN) 28 con FR (77,7%)
N.º hipoacusias moderada/leve		3 (17,6%) (0,66 por mil)	29 (41,4%) (1,25 por mil)	32 (36,8%) (1,15 por mil) 18 con FR (56,2%)
N.º hipoacusias unilateral		2 (11,7%) (0,44 por mil)	17 (24,3%) (0,7 por mil)	19 (21,8%) (0,68 por mil) 9 con FR (47,3%)
N.º hipoacusias sin FR		6 (35%) (1,3 por mil)	26 (37%) (1,12 por mil)	32 (37%) (1,15 por mil)
N.º hipoacusias con FR		11 (6,6% de los RN con FR) 64,7% de hipo.	44 (4,9% de los RN con FR) 62,8% de hipo.	55 (5,17% de los RN con FR. 45 veces más que en los RN sin FR). 63,2% de hipo.
N.º hipoacusias en etnia gitana		6 (35,3% del total). (6/351: 1,7% de los RN de etnia gitana)	16 (22,8% del total)	22 (25,3% del total)
Sospecha de hipoacusia	156			
N.º Hipoacusias en caso de sospecha	53 (34% de las sospechas de hipoacusia)			

OEAT: otoemisiones acústicas transitorias; PEATC-A: potenciales evocados auditivos del tronco cerebral automáticos; RN: recién nacido; FR: factor de riesgo; N.º: número; HNSPB: hipoacusia neurosensorial severa/profunda bilateral; SH: sospecha de hipoacusia; v: varón, m: mujer.

[202]

los antecedentes familiares de hipoacusia, la presencia de malformaciones o síndromes que asocian hipoacusia y a cierta distancia, el peso inferior a 1.500g, la asfixia y la infección neonatales. Los factores con mayor probabilidad de generar hipoacusia fueron: las enfermedades neurodegenerativas (retraso madurativo con alteraciones neurológicas), la presencia de malformaciones craneofaciales o síndromes que pueden asociar hipoacusia, los antecedentes familiares de hipoacusia y la sospecha de hipoacusia.

BENITO-OREJAS J I ET AL.

Tabla 2. Frecuencia relativa de los FR durante el cribado de alto riesgo en 162 pacientes e índice de patogenicidad con relación a las 20 HNSPB detectadas en este periodo.

FR ordenados por f	recuencia	FR ordenados por índice de patogenicidad				
Fármacos ototóxicos	17% de los RN con FR	Síndrome o Malformación	28,6% de HNSPB			
Antecedentes familiares de hipoacusia	14%	Sospecha de hipoacusia (con oído medio normal)	25%			
Síndrome o Malformación	14%	Antecedentes familiares de hipoacusia	21,6%			
Infección	12,5%	Hipoxia	12,9%			
Hipoxia	12%	Infección	9%			
Peso < 1.500g	11%					

FR: factores de riesgo; RN: recién nacido; HNSPB: hipoacusia neurosensorial severa/profunda bilateral.

Tabla 3. Número y distribución de los FR totales y asociados con hipoacusia (de cualquier grado) registrados durante el cribado universal con OEAT en 264 RN.

FR ordenados por fre	cuencia	FR ordenados por índice de patogenicidad					
	Número		Número de FR asociado a hipoacusia	Índice de patogenicidad			
Síndrome o malformación	64	Enfermedad neurodegenerativa	9	43%			
Antecedentes hipoacusia	63	Síndrome o malformación	16	25%			
Peso < 1.500g	57	Antecedentes hipoacusia	10	16%			
Hipoxia	54	Sospecha hipoacusia	1	14%			
Infección	50	Infección	6	12%			
Ototóxicos	50	Ventilación mecánica	3	12%			
Ventilación mecánica	25	Hipoxia	5	9%			
Enfermedad neurodegenerativa	21	Peso < 1.500g	4	7%			
Sospecha hipoacusia	7	Ototóxicos	1	2%			
Hiperbilirrubinemia	4	Hiperbilirrubinemia	0	0%			

El índice de patogenicidad de los síndromes asociados a hipoacusia es del 31% y el de las malformaciones craneofaciales del 21% (en conjunto, 25%).

Análisis de las hipoacusias de inicio tardío

Analizamos el número y características de las HPP evaluadas en el hospital y de aquellas en las que confirmamos un diagnóstico de hipoacusia posnatal pero que procedieron de cualquier otro hospital de nuestra región desde que comenzamos el programa de cribado (1-10-2004) en la Comunidad de Castilla y León.

Durante los años 2007 a 2018 (12 años) del periodo de cribado universal con PEATC-A, registramos 733 niños con FR que fueron remitidos para seguimiento de HPP, de los que 307 (42%), hicieron

la segunda visita y la audiometría conductual. El porcentaje de los que acudieron por año varió del 69% al 27%. El resto (58%), o bien no acudió a las citaciones o fueron seguidos con OEAT, sin poder precisar el porcentaje de cada posibilidad.

De nuestro hospital, detectamos 7 niños con hipoacusia tardía, que fueron *pasa* durante el cribado universal (2001 a 2019) de 27.649 evaluados, lo que supone un 0,25 por mil de los RN en ese periodo (8% de las hipoacusias congénitas diagnosticadas y 0,65% de los RN con factores de riesgo). Dos lo fueron en el periodo de cribado

BENITO-OREJAS J I ET AL.

con OEAT, con 4.509 evaluados (0,45 por mil RN) y 5 durante el cribado con PEATC-A, con 23.140 RN evaluados (0,21 por mil RN). De estas 7 hipoacusias (4 varones y 3 mujeres), 3 son unilaterales (43%), 3 de grado leve/moderado bilateral (43%) y 1 de grado profundo bilateral (14%, frente al 41,4% de HNSPB que diagnosticamos con el cribado auditivo neonatal). 5 de las 7 con FR (71,4%) y en 4, con OMS al poco de nacer (57%), en cuyo seguimiento se verificó la existencia posterior de una hipoacusia permanente. Tres de las cinco (60%) HPP, fueron detectadas durante el periodo de cribado con PEATC-A y seguimiento de los FR con audiometría conductual. Las tres desarrollaron OMS de forma temprana, lo que, junto a los FR, hizo que se incluyeran en el protocolo. Uno de estos niños presenta un S. Down, con importante retraso psico-motor, otro es portador de varios FR neonatales (prematuridad y peso < 1.500g, estancia en UCI superior a 5 días) y finalmente el tercero, tiene antecedentes familiares de hipoacusia y una hermana en seguimiento por hipoacusia.

De los nacidos en otro hospital a partir de la instauración del cribado auditivo universal con PEATC-A en la Comunidad de Castilla y León, evaluamos 31 hipoacusias tardías. Junto a las 7 encontradas en nuestro hospital, resumimos las características de las 38 hipoacusias posnatales estudiadas (Tabla 4):

- 24 hombres (63%) y 14 mujeres (37%); distribución en género, similar a la hipoacusia congénita.
- Edad media de diagnóstico: 3 años y 8 meses (desde 3 meses de edad a 10 años). El 44,7% diagnosticados con menos de 3
- 12 son tardías prelocutivas (< 2 años); 7 tardías perilocutivas (2 a 4 años) y 9 tardías poslocutivas (> 4 años). En 10 desconocemos el momento de aparición.
- 20 (52,6%) asociadas a FR (en la hipoacusia congénita se asocian el 63%).

- Respecto a la etiología: 15 (39,5%) son probablemente de causa genética (en algunos casos confirmada y en otros, con claros antecedentes o con una morfología muy peculiar de la audiometría); 4 con síndromes que asocian hipoacusia (2 hermanos con Usher, 1 Hunter y 1 Down); 1 con malformación craneofacial; 6 de causa neurodegenerativa (retrasos de mielinización...; origen infeccioso?) y 4 son adquiridas: 2 por causa prenatal, 1 neonatal y 1 posnatal. En 8 pacientes (26%) la etiología fue desconocida.
- 5 niños son de etnia gitana: 13% (frente al 25% de la hipoacusia congénita).
- Teniendo en cuenta el mejor oído, 7 hipoacusias son leves (19,5%); 14 moderadas y 9 HNSPB (25%). 8 unilaterales (21%) y 30 bilaterales (79%). Con relación a los datos de hipoacusia congénita (Tabla 1), en las tardías, se detectan más hipoacusias leves/moderadas bilaterales (55% en las posnatales, frente al 37% en las congénitas) y por tanto menos HNSPB (del 41% al 25% en las posnatales), siendo similar el de unilaterales (22% vs. 21%).
- En cuanto al tipo: 35 (92%) son neurosensoriales, 2 de transmisión bilateral y 1 mixta bilateral.
- El síntoma inicial de la hipoacusia tardía fue la sospecha de hipoacusia (53%), seguido de retraso en el lenguaje (17%). Un 25 % de ambos síntomas asociaba OMS. En un 19% el paciente acudió por OMS persistente que, tras la cirugía y el estudio auditivo, se pudo comprobar que añadía una hipoacusia permanente. En un 11% el motivo de consulta fue otro distinto a los señalados.
- En dos casos, se trataba de niños que fueron inicialmente no pasa, pero que, al forzar la repetición de la prueba de cribado, terminaron siendo pasa.

[204]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

Tabla 4. Características de las 38 hipoacusias posnatales.

Procedencia	OEAT	OEAT	PEATC-A	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	PEATC-A	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	PEATC-A	Otra	Otra
Etiología	Desconocida	¿Genética?	Síndrome	¿Genética?	¿Genética?	¿Genética?	Malformación	¿Genética?	¿Genética?	Neurológica	Síndrome	Desconocida	¿Genética?	¿Genética?	Adquirida Pre	Genética	¿Genética?	Adquirida Neo	Desconocida	¿Genética?	Neurológica	Desconocida	Neurológica
Momento de Aparición	Tardía Pos	Tardía	Tardía Peri	Tardía	Tardía Pos	Tardía Pos	Tardía Pos	Tardía	Tardía	Tardía Pos	Tardía Pre	Tardía Peri	Tardía Pre	Tardía Peri	Tardía	Tardía Pre	Tardía	Tardía Peri	Tardía Pos	Tardía Pos	Tardía Pre	Tardía Peri	Tardía
Factores Riesgo	NO	IS	IS	IS	ON	IS	IS	NO	IS	NO	ON	NO	IS	IS	ON	IS	IS	SI	ON	NO	ON	NO	SI
Grado Hipoacusia OI	Profunda 2°	Leve	Moderada 1°	Moderada 1º	Moderada 1º	Moderada 1º	Leve	Moderada 1º	Leve	Leve	Severa 2°	No Hipo	Leve	Moderada 2º	No Hipo	Moderada 2º	Moderada 2º	Severa 1°	Moderada 2º	No Hipo	No ondas	Moderada 1º	Moderada 1º
Grado Hipoacusia OD	No Hipo	No Hipo	Moderada 1°	Moderada 1°	Leve	Moderada 2°	Leve	Moderada 1°	Moderada 2°	Leve	Severa 1º	No ondas	Moderada 1°	Severa 1°	No ondas	Severa 1°	Moderada 2º	Moderada 2º	Moderada 2°	Leve	No ondas	Moderada 1°	Moderada 1º
Meses	6	3	4	4	0	6	0	4	4	0	8	9	3	3	6	11	6	2	2	6	3	0	2
Años	9	0	0	5	10	6	7	7	5	2	1	5	0	3	4	0	2	3	6	8	1	4	3
Fecha de nacimiento	17/07/2001	01/01/2002	19/12/2004	09/02/2005	20/03/2005	21/10/2005	28/11/2005	15/04/2006	15/06/2006	02/00/2006	03/02/2002	03/08/2007	23/08/2007	25/08/2007	15/02/2008	04/04/2008	30/12/2008	29/01/2009	23/02/2009	10/06/2009	16/10/2009	11/12/2009	24/02/2010
Género	Mujer	Hombre	Hombre	Mujer	Hombre	Mujer	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Mujer	Mujer	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Mujer	Mujer	Mujer	Hombre
Número		2	3	4	5	9	7	8	6	10	11	12	13	14	15	16	17	18	19	20	21	22	23

[205]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

					_		_	_	_	_	_	_	_	_	
Procedencia	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	Otra	PEATC-A	Otra	Otra	Otra	PEATC-A	Otra	Otra	Otra.
Etiología	¿Genética?	Desconocida	Síndrome	Genética	Síndrome	Desconocida	¿Genética?	Desconocida	Desconocida	Adquirida pos	¿Genética?	Adquirida Neo	Neurológica	Neurológica	Neurológica
Momento de Aparición	Tardía Pos	Tardía	Tardía Peri	Tardía Pre	Tardía Pre	Tardía	Tardía	Tardía Peri	Tardía Pos	Tardía Pre	Tardía Pre	Tardía Pre	Tardía Pre	Tardía Pre	Tardía Pre
Factores Riesgo	SI	NO	NO	IS	IS	NO	IS	NO	NO	NO	IS	SI	NO	IS	IS
Grado Hipoacusia OI	Severa 2°	Moderada 2º	Moderada 2º	Severa 1°	Severa 1°	Leve	Moderada 1º	Leve	Moderada 2º	No ondas	Severa 1°	Moderada 1º	Severa 1°	Profunda 2°	Moderada 1º
Grado Hipoacusia OD	Severa 2º	Moderada 2°	No Hipo	Severa 1º	Profunda 1°	Leve	Moderada 1º	Moderada 1°	No Hipo	No ondas	Severa 1º	No Hipo	Severa 1º	Profunda 2°	Moderada 1º
Meses	0	3	9	6	3	0	3	5	5	6	8	3	5	5	3
Años	5	5	2	0	0	4	5	3	5	0	0	0	2	1	0
Fecha de nacimiento	07/05/2010	10/05/2010	16/07/2010	09/09/2010	24/10/2010	27/01/2011	14/04/2011	29/07/2011	22/09/2011	20/02/2012	20/08/2012	20/04/2013	24/08/2013	10/04/2016	23/10/2019
Género	Mujer	Mujer	Hombre	Mujer	Hombre	Hombre	Mujer	Mujer	Mujer	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre	Hombre
Número	24	25	26	27	28	29	30	31	32	33	34	35	36	37	38

Ordenados por fecha de nacimiento. Edad en años y meses a los que fue diagnosticado cada paciente. Grado de hipoacusia: (Leve (<40 dB); Moderada 1º 119 dB); No ondas en PEATC. Momento de aparición: Tardía (sin precisar su inicio); tardía prelocutiva (< 2 años); tardía perilocutiva (2 a 4 años); tardía poslocutiva (> 4 años). Etiología: ¿genética? (posiblemente de causa genética); Adquirida prenatal, neonatal o posnatal. Procedencia: Cribado universal en el hospital (con OEAT o PEATC-A); otra: procedente de otro hospital. (41-55 dB); Moderada 2º (56-70 dB); Severa 1º (71-80 dB); Severa 2º (81-90 dB); Profunda 1º (91-100 dB); Profunda 2º (101-110 dB); Profunda 3º (111-

[206]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

En la Tabla 5 se muestra la frecuencia con que se distribuyen los FR encontrados en los 20 niños con hipoacusia posnatal, con una media de 1,55 FR por niño. Los antecedentes familiares de hipoacusia y la presencia de malformación cráneo facial o síndrome que asocia hipoacusia, son los factores más frecuentes. La hipoxia severa, el bajo peso o la intubación, suelen ser factores asociados y relacionados con la estancia en UCI neonatal. El 40% de las hipoacusias tardías, venían disfrazadas con OMS.

DISCUSIÓN

Hemos seguido a una cohorte de 27.649 niños, nacidos en un hospital terciario y de referencia para el diagnóstico de la hipoacusia infantil, a los que cribamos auditivamente de forma universal, con OEAT (durante 3 años) y con PEATC-A (durante 15 años). En este tiempo hemos diagnosticado un 3,14 por mil RN de hipoacusias congénitas ≥ 30 dB, que representa un porcentaje similar al de otros de nuestro entorno [35] (Tabla 1). La tasa de hipoacusia en los programas de cribado auditivo universal varía del 1 al 4 por mil [26, 36, 37], siendo más alta en los países menos desarrollados [38]. En nuestro medio influye el hecho, de que el 25% de las hipoacusias congénitas diagnosticadas, pertenecen a la etnia gitana.

Desde las primeras recomendaciones del JCIH en 1972 [1], los FR de hipoacusia siempre fueron considerados los principales predictores para la detección de las hipoacusias congénitas y posteriormente para el seguimiento posnatal de las tardías. El fundamento de los protocolos de alto riesgo se basa en la eficacia que supuestamente supone el registro de un pequeño número de niños (2,4 al 10%) [4-6], frente a la ventaja de permitir el diagnóstico de más del 50% de las hipoacusias congénitas [39, 40]. En nuestros resultados, el porcentaje de RN con FR es del 3,84%, similar a otros [41, 42], pero muy inferior al 10% referido por Dumanch et al. (2017) [43]. Aunque es cierto que más del 50% de las hipoacusias congénitas asocian FR y que en estos niños el riesgo de hipoacusia congénita se incrementa [22, 44], hasta 45 veces en nuestra población; la aplicación de estos programas no ofreció, por diferentes circunstancias, los resultados esperados [6-9, 29, 30]. Pero, además, dado el alto porcentaje de pacientes que durante el cribado de alto riesgo acudían por sospecha de hipoacusia, con FR no registrados al nacimiento, no era posible reconocer si estos, eran responsables de la hipoacusia tardía.

Aunque actualmente el cribado auditivo universal ha demostrado su eficacia y sensibilidad, reduciendo drásticamente el promedio de edad del diagnóstico de la hipoacusia permanente, de 24-30 meses a 2-3 meses [45], surge la necesidad de mantener una vigilancia de los niños que lo superan, al constituir una importante preocupación general el diagnóstico precoz de la hipoacusia tardía. En la declaración del JCIH del año 2000

Tabla 5. Frecuencia de distribución de los FR en los 20 niños diagnosticados de hipoacusia tardía.

FR de hipoacusia posnatal, ordenados por frecuencia								
Factor de riesgo	Número de hipoacusias	Porcentaje						
Antecedentes familiares de hipoacusia	En 13 de los 20 niños con FR e HPP	65%						
Síndrome o malformación	8	40%						
Hipoxia severa	4	20%						
Peso < 1.500g	3	16%						
Intubación	3	15%						
Factores asociados a otros FR								
OMS	8	40%						

[207]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

[10], se establece la conveniencia de un protocolo de control periódico de los niños con determinados FR y a pesar del escaso rendimiento que obtuvimos con su uso en la detección de la hipoacusia congénita, intentamos comprobar su validez en el diagnóstico de la hipoacusia posnatal. Estudios previos de características similares al nuestro, son los de Watkin et al., 2005 [42], que siguen durante 10 años a un 3,5% de niños con FR; Guastini et al., 2010 [41], con una tasa de referencia del 3% y Beswick et al., 2012 [46] con un porcentaje de seguimiento del 2,8%.

Durante 12 años (2007-2018), un 4% (733 RN) de los 18.229 RN evaluados con PEATC-A, fueron registrados con FR; un número seguramente inferior al real, porque hay factores que pasan desapercibidos y otros que no son comunicados por el pediatra o la familia (por ej., los antecedentes de hipoacusia) al personal de cribado; pero que en ningún caso alcanzaría la cifra del 10% que otros refieren [43]. A pesar de establecer un sistema de rastreo, sólo conseguimos el seguimiento del 42% (307 niños), que aun pareciendo escaso, coincide con el de otros autores [46-52], poniendo de relieve las limitaciones de este protocolo [48]. Por una parte, son muchos los recursos necesarios para implementar un seguimiento dirigido; pues se deben establecer los criterios, citar a los niños que los cumplen, realizar las pruebas auditivas indicadas, mantener el control durante el tiempo establecido... y por otra, las familias deben asumir el transporte, la pérdida laboral para acudir a las citas y la ansiedad que todo este proceso les ocasiona. Coincidiendo con el resultado de otros programas de salud, el cumplimiento es escaso, porque, en definitiva, no es valorado como importante por las familias, quizá por la tranquilidad derivada de pasar el cribado auditivo neonatal y por observar una correcta respuesta general del niño al estímulo sonoro. No es infrecuente que estos niños tengan además otras condiciones médicas, que precisen de más citas y donde, por los factores referidos, el control de la audición quizá no se considere como prioritario.

Además de perder a más del 50% de los niños que pretendíamos seguir, la evaluación de los FR posnatales, sólo permite el diagnóstico precoz de la HPP en un porcentaje de niños, variable entre el 37 y el 57% [17, 19, 22] y que en los resultados de los que nos derivaron de otros hospitales corresponde al 53%, porque el desarrollo de la HPP puede deberse a otras condiciones que resultan imposibles de reconocer si no es con una evaluación específica (infección asintomática por CMV, malformaciones de oído interno, hipoacusia hereditaria no sindrómica...), por lo que un cribado de la HPP basado en el seguimiento de FR, dejará escapar a casi la mitad de los niños con hipoacusia. Por tanto, dado que en algunos niños con HPP no se detectan FR y en otros, el deterioro auditivo podría comenzar, como después veremos, a partir de los 3 años, la monitorización auditiva de los niños con FR entre los 2 y 3 años, propuesta por el JCIH 2007 [12], resulta insuficiente [17]. Mientras que los resultados de los programas de cribado auditivo universal están constantemente monitorizados, falta un control epidemiológico y un preciso seguimiento de las hipoacusias que se desarrollan posteriormente [21].

De los 27.649 RN evaluados, hemos detectado un 0,25 por mil de hipoacusias tardías, que representa el 8% de las hipoacusias congénitas y el 0,65% de los RN con FR, similar al referido por otros autores. Durante 10 años, Watkin y Baldwin, 2011 [20, 42] siguieron a 35.668 niños y detectaron un 0,25 por mil de HPP; Beswick et al., 2012 [48] con un protocolo similar al nuestro, registran un 2,8% de FR en 261.328 niños (7.320), no completando las citas el 52% e identificando a 56 con hipoacusia posnatal (0,2 por mil RN y 0,77% de RN con FR); Mehra et al., 2009 [53] resumen los resultados publicados entre 1958 y 1995, obteniendo una prevalencia de hipoacusia tardía del 3 por mil en niños entre 3 y 19 años; Van Naarden et al., 1999 [54] estiman la prevalencia de la HPP > 40 dB en 0,25 por mil; Fortnum et al., 2001 [55], encuentran tasas de prevalencia del 1,65 por mil a los 9 años de edad y del 2,05 a los 16 años, frente al 1,06 por

[208]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

mil en el nacimiento; Lü et al., 2011 [19] en un grupo de 21.427 niños refieren un 0,23 por mil de HPP >40 dB; Weichbold et al., 2006 [17], un 0,25 por mil a la edad de 4 años y expresan que el 25% de la hipoacusia infantil permanente bilateral, se produce desde el nacimiento a los 9 años. Dos estudios epidemiológicos del Reino Unido encuentran porcentajes de HPP del 16 y 11% respecto a la hipoacusia congénita [56, 57]. La revisión sistemática de Fortnum et al., 2003 [58] concluye que, de un 7,5% a un 25,2% de todos los niños con hipoacusia la tienen de inicio tardío (nosotros detectamos un 8%). Finalmente, el número de hipoacusias posnatales se incrementa con la edad [19], lo que está de acuerdo con estudios previos [59], probablemente porque los niños más mayores estén más expuestos a factores causales.

FACTORES DE RIESGO DE HIPOACUSIA TARDÍA

Si bien es cierto que la mayoría de los FR recomendados por el JCIH sirven para identificar la hipoacusia tardía [60, 61], en la literatura se sigue discutiendo la conveniencia de cada uno [43, 46, 49]. La revisión sistemática llevada a cabo por Beswick et al., 2012, 2013 [46, 49], concluye que hay suficiente evidencia para establecer un seguimiento de la infección por CMV y ECMO y que las malformaciones craneofaciales y los antecedentes familiares de hipoacusia, son buenos predictores de la hipoacusia tardía en los niños. En el Programa de cribado auditivo del Reino Unido [47], los factores de riesgo considerados con mayor prevalencia son: síndromes asociados con hipoacusia, incluido el síndrome de Down, anomalías craneofaciales e infección congénita; pero no todo el mundo está de acuerdo con estos datos [60, 62]. En nuestro estudio, los factores de riesgo más frecuentes de hipoacusia posnatal (Tabla 5), son los antecedentes familiares de hipoacusia, la presencia de malformaciones o síndromes que asocian hipoacusia, la hipoxia severa y el bajo peso; lo que coincide con los referidos por Beswick et al., 2012 [46], Weichbold et al., 2006 [17] y Dumanch et al., 2017 [43]. La otitis media serosa está presente en un porcentaje importante de HPP (40%), pero como factor añadido a otros. También se sugiere que, a mayor número de FR, hay más probabilidad de hipoacusia [5, 43], lo que no hemos corroborado en el caso de la hipoacusia congénita; pero, sin embargo, la media de FR por niño con hipoacusia tardía es de 2,2, superior a la de la hipoacusia congénita [1, 6].

CARACTERÍSTICAS DE LA HIPOACUSIA TARDÍA

Coincidiendo con otras publicaciones [46, 48], las hipoacusias posnatales que hemos diagnosticado son fundamentalmente bilaterales y de tipo neurosensorial; aunque la proporción de los diferentes grados y tipos de hipoacusia es variable según los autores [20, 48]. Nuestros resultados son similares a los aportados por Weichbold et al., 2006 [17] y de acuerdo con Lü et al., 2014 [63], en la HPP hay más casos de hipoacusia bilateral leve y unilateral que, no obstante, tienen un gran impacto en el desarrollo lingüístico del niño [59, 64]. Las hipoacusias de carácter leve o con un perfil audiométrico determinado (caída en tonos agudos) pueden pasar el cribado auditivo universal, donde el umbral con PEATC-A se fija en 35 dB [52]. Un 23% de los niños que detectamos con hipoacusia posnatal mostraban un grado leve (≤ 40 dB), lo que podría justificar el que fueran pasa en el cribado auditivo neonatal. La hipoacusia progresa desde el nacimiento en casi la mitad de estos niños y dicho deterioro no está relacionado con un FR determinado [65].

Cuando no se produce una detección precoz de la HPP, la sospecha parenteral de hipoacusia (en el 53 % de nuestros casos) o las alteraciones del lenguaje (en el 17%) son los motivos más frecuentes de consulta, coincidiendo estos resultados con los de otros [17, 48, 66]. La efectividad del cribado auditivo universal crea un falso sentido de seguridad en los padres y pediatras, sobre todo si el niño no es portador de factores de riesgo, pudiendo facilitar un retraso diagnóstico ante determinados síntomas.

[209]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

Son múltiples las causas que condicionan la aparición de una hipoacusia tardía y además del mecanismo descrito que pudiera justificar la presencia tardía de hipoacusias leves, existen otras. Dedhia et al., 2013 [66] indican que, un motivo pudiera ser la incorrecta interpretación de la prueba de cribado, por falta de experiencia. En dos de los niños estudiados, el resultado del cribado con PEATC-A fue de no pasa, pero al forzar varias veces su repetición, terminó siendo pasa, con el diagnóstico posterior de hipoacusia. También puede ser consecuencia de un falso negativo, por ejemplo, si se usan las OEAT como procedimiento de cribado auditivo en presencia de una neuropatía auditiva [66]. Y por este motivo, el JCIH, 2007 [12], recomienda cribar con PEATC-A a los neonatos con una estancia en UCI superior a 5 días, dada la alta prevalencia de neuropatía en estos niños. De los 38 pacientes analizados con HPP, 2 tenían neuropatía (similar a Watkin, Baldwin, 2011 [20] y Beswick et al., 2012 [48]), lo que está de acuerdo con su escasa prevalencia de 1/10.000 RN [20]. Un ensanchamiento del acueducto vestibular puede provocar una hipoacusia tardía y progresiva que se desarrolle lenta o bruscamente, apareciendo desde el nacimiento a la adolescencia, aunque es más frecuente en los primeros años de vida [67]. Las causas adquiridas son poco frecuentes en nuestros resultados, pero más fáciles de diagnosticar debido a la presencia de un reconocido factor desencadenante. Varios niños mostraban en el estudio de imagen, retraso en la mielinización, que pudiera estar en consonancia con una infección por CMV [68], cuya prevalencia media estimada en Europa es de 6-7 niños por cada 1000 RN, siendo la causa del 34% de las hipoacusias tardías de origen desconocido y del 22% de las HNSPB no genéticas. Por tal motivo, hemos establecido en nuestra Comunidad de Castilla y León un consenso, para realizar una prueba de PCR de CMV en orina, a todos los niños que sean no pasa de uno o ambos oídos en el cribado auditivo, antes de los 15 días de vida [69]. De acuerdo con lo publicado en la literatura [48,

66] un 19% de nuestros pacientes fueron diagnosticados de hipoacusia neurosensorial al realizar las pruebas audiológicas rutinarias tras la colocación de drenajes transtimpánicos (DTT), por lo que deberemos tener en cuenta en este seguimiento de la hipoacusia permanente posnatal a los niños con otitis medias recidivantes o crónicas [19, 70]. La OMS se asociaba a un 40 % de HPP.

La edad media a la que diagnosticamos la HPP fue de 3 años y 8 meses (variable, de 3 meses a 10 años), similar a la encontrada por Lü et al., 2014 [63] e intermedia entre la expresada por Jeong et al., 2016 [22] (2 años) y la de Dedhia et al., 2013 [66] (4 años y medio) y Watkin, Baldwin, 2011 [20] (> 5 años). En estos casos, un programa de detección precoz, como el propuesto por el JCIH, 2007 [12], entre 24 y 30 meses, podría tener sólo una utilidad parcial, siendo para otros, demasiado tardío [22]. Es decir, dado el crecimiento de la hipoacusia posnatal con la edad, una evaluación completa requeriría establecer varios controles auditivos a lo largo del tiempo.

Consideraciones finales

Carecemos de datos precisos respecto al porcentaje de niños que desarrollan hipoacusia posnatal y del suficiente conocimiento epidemiológico que nos permita identificar sus causas y la edad de presentación [47]. El seguimiento de los factores de riesgo propuestos por el JCIH, 2000 [10] como indicadores de hipoacusia posnatal, no resulta ni eficaz ni económicamente rentable en nuestro medio y las recomendaciones posteriores de 2007 [12], son difíciles de interpretar y no ofrecen un patrón respecto a la duración del seguimiento. Como alternativa, se proponen dos opciones, que no son contrapuestas:

Repetir el cribado auditivo a todos o a un grupo específico de niños, como parte de los programas de salud, en la guardería, etc., utilizando la audiometría conductual o preferiblemente, por su rapidez, las otoemisiones acústicas [27, 50]. Este cribado repetido es un procedimiento complejo, costoso

[210]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

y carecemos de estudios epidemiológicos que nos indiquen en qué momento y con qué frecuencia tendría que llevarse a cabo [17, 51].

Pero en función de lo expresado en la literatura pensamos que, de momento, debería mantenerse el seguimiento de los niños con factores de riesgo de elevada prevalencia de hipoacusia, que en nuestro medio y a la vista de los resultados obtenidos serían, los síndromes que asocian hipoacusia, incluido el síndrome de Down (para el que se dispone de un programa específico de seguimiento audiológico) [71], las malformaciones cráneo faciales excluyendo la presencia de apéndices o fístulas preauriculares (muy frecuentes, pero con escasa incidencia de hipoacusia), los antecedentes familiares de hipoacusia [72], sólo en los casos de afectación de padres o hermanos, dada la importancia de la transmisión autosómica dominante en la HPP [73], el ECMO y por supuesto, aquellos pacientes con factores neonatales importantes o alteraciones neurodegenerativas, en los que pediatría considere este seguimiento [13]. En función de las guías de buena práctica, evaluaremos la audición en las posibles causas adquiridas posnatales: traumatismo craneal, daño auditivo por ruido, seguimiento de los que sobreviven a una meningitis..., y la monitorización rutinaria de grupos específicos (además del síndrome de Down, los niños con hendidura palatina o en tratamiento quimioterápico y dados nuestros resultados, tras la colocación de DTT por OMS u otitis agudas de repetición). Pero además del seguimiento de estos FR, creemos que sería conveniente, por el elevado porcentaje de HPP no asociadas a FR, la realización de un estudio de cribado neonatal con pruebas genéticas de hipoacusia, especialmente en quienes presenten antecedentes familiares [74] y el análisis del CMV en orina a todos los RN o al menos, a los que no pasan el cribado auditivo de uno o ambos oídos [69]. Las mutaciones genéticas más frecuentes en el desarrollo de la HPP son las del GIB2 (conexina), mutación mitocondrial A1555G y la mutación SLC26A4 [75, 76]; pero se necesitan

amplios estudios epidemiológicos, para establecer el mejor método de cribado genético en el neonato. Se supone que la implementación del cribado del CMV, en combinación con el genético y el auditivo, permitirían detectar el 60% de neonatos con riesgo de una hipoacusia tardía [75, 77], lo que, junto al seguimiento de los factores de alto riesgo de hipoacusia indicados, incrementaría este porcentaje diagnóstico. Estas son también las últimas recomendaciones que publica la CODEPEH 2020, en España [78].

Además, debemos enfatizar a los padres y a los profesionales, la importancia de estar alerta ante la posibilidad de una hipoacusia tardía y referir cuanto antes a un niño con sospecha de pérdida auditiva a un centro audiológico especializado.

LIMITACIONES DEL ESTUDIO

Los autores reconocen que este estudio presenta varias limitaciones. A la hora de extrapolar los datos a una determinada población, consideraremos que proceden de un solo hospital y con características particulares respecto al número de pacientes evaluados, al tratarse de un centro de referencia en el diagnóstico de la hipoacusia infantil. Sin embargo, añade la ventaja de que los criterios aplicados han sido uniformes. Ha habido cambios en el procedimiento a lo largo del periodo de estudio, desde la consideración exclusiva de los FR del JCIH de 1990 y 1994 [3, 4] en el cribado de alto riesgo, hasta el seguimiento actual, con el cribado auditivo universal, de los FR posnatales referidos por el JCIH en los años 2000 y 2007 [10, 12]. Dada la pérdida de pacientes en el control de la hipoacusia posnatal, los resultados, aun coincidiendo con los de otros autores, deben tomarse con precaución. Así mismo tendremos en cuenta, que desconocemos el porcentaje de niños con hipoacusia posnatal respecto al número de RN cribados auditivamente que han sido remitidos desde otros centros al nuestro.

[211]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

AGRADECIMIENTOS

Para mantener un protocolo de seguimiento de la hipoacusia posnatal, se requiere la participación de todos los miembros del Servicio de ORL y la dedicación del equipo técnico de enfermería responsable de la realización de las pruebas auditivas. Este trabajo ha sido posible gracias a su colaboración.

BIBLIOGRAFÍA

- Joint Committee on Infant Hearing. Position statement. ASHA. Washington, DC. America Speech-Languaje Association 1972.
- 2. Joint Committee on Infant Hearing. Position statement. ASHA. 1982;24:1017-8.
- 3. Joint Committee on Infant Hearing. Position statement. ASHA. 1990;32(9):63-6.
- 4. Joint Committee on Infant Hearing. Position statement. ASHA. 1994;36:38-41.
- Grupo Multicéntrico de detección precoz de la hipoacusia infantil. Manrique M, Morera C, Moro M. Detección precoz de la hipoacusia infantil en recién nacidos de alto riesgo. Estudio multicéntrico. An Esp Pediatr 1994;40(Sup 59):11-45.
- 6. NIH Consens Statement. Early identification of hearing impairment in infants and young children. 1993; 11(1): 1-24.
- CODEPEH (Comisión para la detección precoz de la hipoacusia infantil). Propuesta para la detección e intervención precoz de la hipoacusia infantil. An Esp Pediatr. 1999;51:336-44.
- 8. Martín G, Benito JI, Condado MA, Morais D, Fernández-Calvo JL. Diagnóstico precoz de hipoacusia infantil: protocolo de detección en neonatos de alto riesgo. Acta Otorrinolaringol Esp. 2000;51: 31-5.
- Martínez R, Benito JI, Condado MA, Morais D, Fernández-Calvo JL. Resultados de la aplicación del protocolo de detección precoz de la hipoacusia en neonatos de alto riesgo. Anales ORL Iber Amer. 2003;XXX:277-87.
- 10. Joint Committee on Infant Hearing. Year 2000 position statement: principles and guidelines

- for early hearing detection and intervention programs. Pediatrics. 2000;106:798-817.
- 11. Martínez R, Benito JI, Condado MA, Morais D, Fernández Calvo JL. Resultados de aplicar durante 1 año un protocolo universal de detección precoz de la hipoacusia en neonatos. Acta Otorrinolaringol Esp. 2003;54(5):309-15. doi: 10.1016/s0001-6519(03)78419-2.
- 12. Joint Committee on Infant Hearing. Year 2007 position statement: principles and guidelines for early hearing detection and intervention programs. American Academy of Pediatrics. Pediatrics 2007;120 (4): 898-921.
- Núñez-Batalla F, Trinidad-Ramos G, Sequí-Canet JM, Alzina De Aguilar V, Jáudenes-Casaubón C. Indicadores de riesgo de hipoacusia neurosensorial infantil. Acta Otorrinolaringol Esp. 2012;63(5):382-90.
- 14. Núñez-Batalla F, Jáudenes-Casaubón C, Sequí-Canet JM, Vivanco-Allende A, Zubicaray-Ugarteche J. Recomendaciones CODEPEH 2014: detección precoz de la hipoacusia diferida, diagnóstico audiológico y adaptación audioprotésica y atención temprana. Acta Otorrinolaringol Esp. 2016;67(1):45-53.
- 15. Ontario Ministry of Children and Youth Services Ontario Infant Hearing Program. Ontario Infant Hearing Program: a guidance document. [consultado 20 jun 2020]. Disponible en: https://infanthearingprogram.com/
- Vos B, Noll D, Pigeon M, Bagatto M, Fitzpatrick EM. Risk factors for hearing loss in children: a systematic literature review and meta-analysis protocol. Syst Rev. 2019;8(1):172. Published 2019 Jul 17. doi:10.1186/s13643-019-1073-x.
- 17. Weichbold V, Nekahm-Heis D, Welzl-Mueller K. Universal newborn hearing screening and postnatal hearing loss. Pediatrics. 2006;117:e631-6.
- 18. Hutt N, Rhodes C. Post-natal hearing loss in universal neonatal hearing screening communities: current limitations and future directions. J Paediatr Child Health. 2008;44(3):87-91. doi:10.1111/j.1440-1754.2007.01275.x.
- 19. Lü J, Huang Z, Yang T, Li Y, Mei L, Xiang M, et al. Screening for delayed-onset hearing loss in preschool children who previously passed the

BENITO-OREJAS J I ET AL.

- newborn hearing screening. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2011;75(8):1045-9. doi: 10.1016/ j.ijporl.2011.05.022.
- 20. Watkin PM, Baldwin M. Identifying deafness in early childhood: requirements after the newborn hearing screen. Arch Dis Child. 2011;96(1):62-6. doi:10.1136/adc.2010.185819.
- 21. Holzinger D, Weishaupt A, Fellinger P, Beitel C, Fellinger J. Prevalence of 2.2 per mille of significant hearing loss at school age suggests rescreening after NHS. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2016;87:121-5. doi:10.1016/j.ijporl.2016.06.006.
- 22. Jeong SW, Kang MY, Kim JR, Kim LS. Delayedonset hearing loss in pediatric candidates for cochlear implantation. Eur Arch Otorhinolaryngol. 2016;273(4):879-87. doi:10.1007/s00405-015-3646-1.
- 23. Bamford J, Fortnum H, Bristow K, Smith J, Vamvakas G, Davies L, et al. Current practice, accuracy, effectiveness and cost-effectiveness of the school entry hearing screen. Health Technol Assess. 2007;11(32):1-iv. doi:10.3310/hta11320.
- 24. Yoong SY, Spencer NJ. A data collection system to audit post-newborn hearing surveillance programme: problems and possibilities. Child Care Health Dev. 2008;34(5):648-56. doi:10.1111/ j.1365-2214.2008.00854.x.
- 25. Mehl AL, Thomson V. The Colorado newborn hearing screening project, 1992-1999: on the threshold of effective population-based universal newborn hearing screening. Pediatrics. 2002;109(1):E7. doi:10.1542/peds.109.1.e7.
- 26. Northern JL, Downs MP. Hearing in children. 6th ed. San Diego: Plural Publishing. Inc; 2014.
- 27. Sideris I, Glattke TJ. A Comparison of Two Methods of Hearing Screening in the Preschool Population. J Commun Disord. 2006;39(6):391-401. doi: 10.1016/j.jcomdis.2005.11.006.
- 28. Moro M, Almenar A, Sánchez C. Detección precoz de la sordera en la infancia. An Esp Pediatr. 1997;46:534-7.
- 29. Grandori F, Lutman M. The European Consensus Development Conference on Neonatal Hearing Screening (Milan, May 15-16, 1998). Am J Audiol. 1999;8(1):19-20. doi:10.1044/1059 -0889(1999/004).

- 30. American Academy of Pediatrics. Task Force on Newborn and infant hearing loss: detection and intervention. Pediatrics. 1999; 103 (2) 527-30; doi: https://doi.org/10.1542/peds.103.2.527.
- 31. Junta de Castilla y León, Consejería de Sanidad. Programa de detección precoz y atención integral de la hipoacusia infantil en Castilla y León. 2004,
- 32. Bureau International d'Audiophonologie. Recomendación BIAP 02/1. Lisboa; 1997 [consultado 20 jun 2020]. Disponible en: http://www. sld.cu/galerias/pdf/sitios/rehabilitacion-logo/ libro_biap_audiologia.pdf
- 33. Benito Orejas JI, Ramírez Cano B, Morais Pérez D, Fernández-Calvo JL, Almaraz Gómez A. Resultados de aplicar durante 42 meses un protocolo universal de detección e intervención precoz de la hipoacusia en neonatos. Acta Otorrinolaringol Esp. 2008 Mar;59(3):96-101.
- 34. Benito-Orejas JI, Ramírez B, Morais D, Almaraz A, Fernández-Calvo JL. Comparison of twostep transient evoked otoacoustic emissions (TEOAE) and automated auditory brainstem response (AABR) for universal newborn hearing screening programs. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2008;72(8):1193-1201. doi:10.1016/ j.ijporl.2008.04.011.
- 35. Sánchez-Gómez H. Análisis del Programa de detección precoz de hipoacusia en recién nacidos en la provincia de Salamanca (años 2005-2014). Tesis Doctoral, Universidad de Salamanca, 2019.
- 36. National Health System, NHS Newborn Hearing Screening Programme: 2010-11 Annual Report and 2009-10 Data Report, 2011 [consultado 17 jun 2020]. Disponible en: http://webarchive. nationalarchives.gov.uk/20150408175925/http:// hearing.screening.nhs.uk/getdata.php?id=22948
- 37. Centers for Disease Control, Summary of 2012 National CDC EHDI Data, 2014 [consultado 17 jun 2020]. Disponible en: http://www.cdc.gov/ ncbddd/hearingloss/2012-data/2012 ehdi hsfs _summary_b.pdf
- 38. Smith RJH, Bale JF, White KR. Sensorineural hearing loss in children. Lancet. 2005;365: 879-890.

[213]

BENITO-OREJAS J I ET AL.

- 39. Watkin PM, Baldwin M, McEnery G. Neonatal at risk screening and the identification of deafness. Arch Dis Child. 1991;66(10 Spec No):1130-5. doi:10.1136/adc.66.10_spec_no.1130.
- 40. Grundfast KM, Lalwani AK. Practical approach to diagnosis and management of hereditary hearing impairment (HHI). Ear Nose Throat J. 1992;71(10):479-93.
- Guastini L, Mora R, Dellepiane M, Santomauro V, Mora M, Rocca A, et al. Evaluation of an automated auditory brainstem response in a multi-stage infant hearing screening. Eur Arch Otorhinolaryngol. 2010;267(8):1199-1205. doi:10.1007/s00405-010-1209-z...
- 42. Watkin P, Hasan J, Baldwin M, Ahmed M. Neonatal hearing screening: have we taken the right road? Results from a 10-year Targeted Screen Longitudinally Followed Up in a Single District. Audiol. Med. 2005; 3: 175–84. doi: 10.1080/16513860500268191.
- 43. Dumanch KA, Holte L, O'Hollearn T, Walker E, Clark J, Oleson J. High Risk Factors Associated With Early Childhood Hearing Loss: A 3-Year Review. Am J Audiol. 2017;26(2):129-142. doi:10.1044/2017_AJA-16-0116.
- 44. Meyer C, Witte J, Hildmann A, Hennecke KH, Schunck KU, Maul K, et al. Neonatal screening for hearing disorders in infants at risk: incidence, risk factors, and follow-up. Pediatrics. 1999;104(4 Pt 1):900-4. doi:10.1542/peds.104.4.900.
- 45. Harrison M, Roush J, Wallace J. Trends in age of identification and intervention in infants with hearing loss. Ear Hear. 2003;24(1):89-95. doi:10.1097/01.AUD.0000051749.40991.1F.
- Beswick R, Driscoll C, Kei J. Monitoring for Postnatal Hearing Loss Using Risk Factors: A Systematic Literature Review. Ear Hear. 2012;33(6):745-56. doi: 10.1097/AUD.0b013e31825b1cd9.
- 47. Wood SA, Davis AC, Sutton GJ. Effectiveness of targeted surveillance to identify moderate to profound permanent childhood hearing impairment in babies with risk factors who pass newborn screening. Int J Audiol. 2013;52(6):394-9. doi:10.3109/14992027.2013.769067.
- 48. Beswick R, Driscoll C, Kei J, Glennon S. Targeted Surveillance for Postnatal Hearing Loss:

- A Program Evaluation. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2012;76(7):1046-56. doi: 10.1016/j.ijporl.2012.04.004.
- 49. Beswick R, Driscoll C, Kei J, Khan A, Glennon S. Which risk factors predict postnatal hearing loss in children?. J Am Acad Audiol. 2013;24(3):205-13. doi:10.3766/jaaa.24.3.6.
- 50. Eiserman WD, Hartel DM, Shisler L, Buhrmann J, White KR, Foust T. Using otoacoustic emissions to screen for hearing loss in early childhood care settings. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2008;72(4):475-82. doi:10.1016/j.ijporl.2007.12.006.
- 51. Halloran DR, Hardin JM, Wall TC. Validity of pure-tone hearing screening at well-child visits. Arch Pediatr Adolesc Med. 2009;163(2):158-63. doi:10.1001/archpediatrics.2008.526.
- 52. Johnson JL, White KR, Widen JE, Gravel JS, James M, Kennalley T, et al. A multisite study to examine the efficacy of the otoacoustic emission/automated auditory brainstem response newborn hearing screening protocol: recommendations for policy, practice, and research. Am J Audiol. 2005;14(2):S217-S228. doi:10.1044/1059-0889(2005/023).
- 53. Mehra S, Eavey RD, Keamy DG Jr. The epidemiology of hearing impairment in the United States: newborns, children, and adolescents. Otolaryngol Head Neck Surg. 2009;140(4):461-72. doi:10.1016/j.otohns.2008.12.022.
- 54. Van Naarden K, Decouflé P, Caldwell K. Prevalence and characteristics of children with serious hearing impairment in metropolitan Atlanta, 1991-1993. Pediatrics. 1999;103(3):570-5. doi:10.1542/peds.103.3.570.
- 55. Fortnum HM, Summerfield AQ, Marshall DH, Davis AC, Bamford JM. Prevalence of permanent childhood hearing impairment in the United Kingdom and implications for universal neonatal hearing screening: questionnaire based ascertainment study. BMJ. 2001;323(7312):536-40. doi:10.1136/bmj.323.7312.536.
- 56. Fortnum H, Davis A. Epidemiology of permanent childhood hearing impairment in Trent region, 1985-1993. Br J Audiol. 1997;31(6):409-46. doi: 10.3109/03005364000000037.

BENITO-OREJAS J I ET AL.

- 57. MacAndie C, Kubba H, McFarlane M. Epidemiology of permanent childhood hearing loss in Glasgow, 1985-1994. Scott Med J. 2003;48(4):117-9. doi:10.1177/003693300304800407.
- Fortnum HM. Epidemiology of permanent childhood hearing impairment: Implications for neonatal hearing screening. Audiol. Med. 2003;
 1 (3): 155–64. doi: 10.1080/16513860310001997.
- Wake M, Tobin S, Cone-Wesson B, Dahl HH, Gillam L, McCormick L, et al. Slight/mild Sensorineural hearing loss in children. Pediatrics. 2006;118(5):1842-51. doi: 10.1542/peds.2005 -3168.
- Kraft CT, Malhotra S, Boerst A, Thorne MC. Risk indicators for congenital and delayed-onset hearing loss. Otol Neurotol. 2014;35(10):1839-43. doi: 10.1097/MAO.0000000000000615.
- 61. Vos B, Senterre C, Lagasse R; SurdiScreen Group, Levêque A. Newborn hearing screening programme in Belgium: a consensus recommendation on risk factors. BMC Pediatr. 2015;15:160. doi: 10.1186/s12887-015-0479-4.
- 62. Pearson F, Mann KD, Nedellec R, Rees A, Pearce MS. Childhood infections, but not early life growth, influence hearing in the Newcastle thousand families birth cohort at age 14 years. BMC Ear Nose Throat Disord. 2013;13:9. Published 2013 Jul 29. doi:10.1186/1472-6815-13-9.
- 63. Lü J, Huang Z, Ma Y, Li Y, Mei L, Yao G, et al. Comparison between hearing screening-detected cases and sporadic cases of delayed-onset hearing loss in preschool-age children. Int J Audiol. 2014;53(4):229-34. doi: 10.3109/14992027.2013.858278.
- Lieu JE, Tye-Murray N, Karzon RK, Piccirillo JF. Unilateral hearing loss is associated with worse speech-language scores in children. Pediatrics. 2010;125(6):e1348-55. doi: 10.1542/peds.2009 -2448.
- Barreira-Nielsen C, Fitzpatrick E, Hashem S, Whittingham J, Barrowman N, Aglipay M. Progressive hearing loss in early childhood. Ear Hear. 2016;37(5):e311-e321. doi:10.1097/ AUD.00000000000000325.
- 66. Dedhia K, Kitsko D, Sabo D, Chi DH. Children with sensorineural hearing loss after passing

- the newborn hearing screen. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg. 2013;139(2):119-23. doi: 10.1001/jamaoto.2013.1229.
- 67. Govaerts PJ, Casselman J, Daemers K, De Ceulaer G, Somers T, Offeciers FE. Audiological findings in large vestibular aqueduct syndrome. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 1999;51(3):157-64. doi: 10.1016/s0165-5876(99)00268-2.
- 68. Fowler KB, Dahle AJ, Boppana SB, Pass RF. Newborn hearing screening: will children with hearing loss caused by congenital cytomegalovirus infection be missed?. J Pediatr. 1999;135(1):60-4. doi:10.1016/s0022-3476(99)70328-8.
- 69. Benito-Orejas J, Benito-González F, García-Vicario F, Martín-Sigüenza G, Rey-Marcos M, Serrano-Madrid M, et al. Detección de la infección por citomegalovirus congénito en neonatos que no pasan el cribado auditivo universal. Revista ORL [Internet]. 24 Sep 2019 [citado 20 Jun 2020]; 10(4): 253-61. Disponible en: https://revistas.usal.es/index.php/2444-7986/article/view/21117.
- 70. Winskel H. The effects of an early history of otitis media on children's language and literacy skill development. Br J Educ Psychol. 2006;76(Pt 4):727-44. doi:10.1348/000709905X68312.
- 71. Borrel-Martínez JM, Flórez-Beledo J, Serés-Santamaría A, Fernández-Delgado R, Albert-Álvarez J, Prieto-Santos C, et al. Programa español de salud para personas con Síndrome de Down. 1ª ed. DOWN ESPAÑA; 2011. 89 p. URI: http://hdl.handle.net/11181/3355. ISBN: 978-84-693-1346-6.
- 72. Driscoll C, Beswick R, Doherty E, D'Silva R, Cross A. The validity of family history as a risk factor in pediatric hearing loss. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2015;79(5):654-9. doi:10.1016/j.ijporl.2015.02.007.
- 73. Bayazit YA, Yilmaz M. An overview of hereditary hearing loss. ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec. 2006;68(2):57-63. doi:10.1159/000091090.
- 74. Costales M, Diñeiro M, Cifuentes GA, Capín R, Otero A, Viejo-Díaz M, et al. Utilidad clínica de la secuenciación de nueva generación en el diagnóstico etiológico de la hipoacusia neurosensorial en una Unidad de Hipoacusia Infantil.

BENITO-OREJAS J I ET AL.

- Acta Otorrinolaringol Esp. 2020;71(3):166-74. doi:10.1016/j.otorri.2019.05.005.
- 75. Morton CC, Nance WE. Newborn hearing screening: a silent revolution. N Engl J Med. 2006;354(20):2151-64. doi:10.1056/NEJMra050700.
- 76. Wang QJ, Zhao YL, Rao SQ, Guo YF, He Y, Lan L, et al. Newborn hearing concurrent gene screening can improve care for hearing loss: a study on 14,913 Chinese newborns. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2011;75(4):535-42. doi:10.1016/ j.ijporl.2011.01.016.
- 77. Schimmenti LA, Martinez A, Fox M, Crandall B, Shapiro N, Telatar M, et al. Genetic testing as part of the early hearing detection and intervention (EHDI) process. Genet Med. 2004;6(6):521-5. doi:10.1097/01.gim.0000144187.21727.28.
- 78. Núnez-Batalla F, Jáudenes-Casaubón C, Sequí-Canet JM, Vivanco-Allende A, Zubicaray-Ugarteche J, Olleta-Lascarro I. Programas de cribado de la hipoacusia congénita en 2020: recomendaciones CODEPEH. Acta Otorrinolaringol Esp. 2020. https://doi.org/10.1016/j.otorri.2020.06.009

[216]

ARTÍCULO ORIGINAL

INCIDENCIA Y FACTORES DE RIESGO EN LA OTOTOXICIDAD POR **CISPLATINO**

Incidence and risk factors of cisplatin-induced ototoxicity

José Ignacio BENITO-OREJAS¹; Ana SÁNCHEZ-MARTÍNEZ¹; Juan José TAVÁREZ-RODRÍGUEZ¹; Darío MORAIS-PÉREZ¹; Diego SOTO-PRADO²; María Fe MUÑOZ-MORENO³

Hospital Clínico Universitario. Valladolid. España

¹Servicio de ORL y Cirugía de Cabeza y Cuello, ²Servicio de Oncología y ³Sección de Bioestadística de la Unidad de Apoyo a la Investigación

Correspondencia: jbenitoorejas@gmail.com

Fecha de recepción: 11 de octubre de 2020 Fecha de aceptación: 8 de noviembre de 2020 Fecha de publicación: 10 de noviembre de 2020 Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

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: El cisplatino es uno de los fármacos de uso clínico con mayor ototoxicidad. Controlando los umbrales auditivos de los pacientes en tratamiento, podemos realizar una detección precoz de la hipoacusia y adoptar medidas terapéuticas. Con este trabajo pretendemos evaluar la incidencia y severidad de la hipoacusia por cisplatino en nuestro medio, identificando los principales factores de riesgo. Métodos: Monitorización y registro, en un hospital de tercer nivel, de la pérdida auditiva por cisplatino, en los primeros 100 pacientes enviados por oncología que aceptan el seguimiento audiológico, aplicando la audiometría de alta frecuencia y las otoemisiones acústicas. Resultados: Se trata de una población fundamentalmente adulta, con una edad media de 59 años. De los 70 pacientes tratados sólo con cisplatino un 27% manifestó la aparición o el incremento de su hipoacusia. En los 30 restantes, que además de cisplatino recibieron radioterapia, detectamos afectación auditiva en el 53%. Los efectos ototóxicos del cisplatino son dosis dependiente y más intensos con audición normal. En nuestros resultados, ni el género, ni la edad, ni la presencia de hipoacusia previa, fueron factores estadísticamente significativos en la vulnerabilidad. Conclusiones: La susceptibilidad variable al daño ototóxico, el inicio clínicamente insidioso y su

[217]

irreversibilidad, justifican la conveniencia de monitorizar la ototoxicidad por cisplatino. Los datos clínicos nos permiten calcular el riesgo medio de una población, aunque no sirvan para predecir lo que le ocurrirá a un paciente en concreto.

PALABRAS CLAVE: cisplatino; ototoxicidad; hipoacusia; factores de riesgo; radioterapia

SUMMARY: Introduction and objectives: Cisplatin is one of the drugs with greater ototoxicity within clinical use. Hearing loss detection and therapeutic measures can be done in early stages by controlling the auditory thresholds of patients on treatment. With this paper we intend to assess the incidence and severity of hearing loss by cisplatin in our environment, identifying major risk factors. Methods: The case study was conducted on a third level hospital by monitoring and recording the hearing loss by cisplatin among the first 100 patients who accepted the audiologic monitoring. Those patients were sent by the oncology department. Then a high frequency audiometry and the otoacoustic emissions was carried out on the patients to evaluate them.

Results: Essentially, we refer to a group which us made up of adults with an average age of 59 years old. Out of the 70 patients treated only with cisplatin, 27% experienced hearing loss. Among the remaining 30 patients who received radiotherapy in addition to cisplatin, hearing impairment at 53% was detected. Cisplatin ototoxic effects are dose-dependent and more intense with normal hearing. In our results, gender, age or the presence of previous hearing loss, were not statistically significant factors in vulnerability. Conclusions: the susceptibility variable to ototoxic damage on patients, the clinically insidious onset of hearing loss and its irreversibility, justify the need to monitor the cisplatin ototoxicity. Clinical data allow us to calculate the risk of an average population, although it does not help to predict what will happen to each patient.

KEYWORDS: cisplatin; ototoxicity; hearing loss; risk factors; radiotherapy

INTRODUCCIÓN

Se podría definir la ototoxicidad medicamentosa, como la disfunción auditiva, temporal o permanente, causada por un fármaco, que produce hipoacusia neurosensorial, acúfeno y/o desequilibrio [1]. Aunque uno de los principios básicos que dicta la medicina hipocrática es primum non nocere (lo primero es no hacer daño), nos enfrentamos con el reto de sopesar el beneficio de combatir una enfermedad que pone en riesgo la vida del paciente, mediante un fármaco que puede traer consecuencias tóxicas [2].

El cisplatino o cis-diaminodicloroplatino es uno de los quimioterápicos más utilizados actualmente, por su extraordinaria efectividad, pero también es de los medicamentos de uso clínico más ototóxico [3]. La hipoacusia deriva del daño en las células ciliadas externas del órgano de Corti, estría vascular y ganglio espiral [4, 5]. Aunque todavía

están en discusión los mecanismos fisiopatológicos que inducen la ototoxicidad por cisplatino, la activación de la apoptosis [6] y la producción de radicales libres de oxígeno en la cóclea [7], serían algunos de los factores implicados. La muerte celular típicamente progresa desde la base hasta el ápex, manifestándose por una sordera neurosensorial permanente, progresiva, bilateral y con afectación inicial de las frecuencias agudas [5, 8].

La hipoacusia por cisplatino puede desarrollarse sin que exista ningún síntoma subjetivo [9]. Puede no ser simétrica [10, 11] y hay quien considera que afecta más a los hombres que a las mujeres [11-13]. Tiene mayor repercusión en la edad infantil, por el impacto que supone en el desarrollo [5, 7, 12-14].

El daño ototóxico depende de múltiples factores de riesgo, estando directamente en relación con la dosis total acumulada [12, 16]. No se ha establecido un umbral por debajo del cual el efecto

ototóxico esté ausente siendo muy variable el rango de vulnerabilidad [14].

Las secuelas pueden aumentar por efecto del ruido intenso [17] o la toma de otros ototóxicos [16, 18]. La radioterapia de la cabeza también puede incrementar este daño, si el oído se encuentra dentro del campo de exposición [19, 20]. Diferentes polimorfismos genéticos pueden influir en la incidencia de la ototoxicidad, determinando parte de esa susceptibilidad individual [21] y finalmente la edad, sería otro factor fisiológico destacado. El daño es más prevalente en los niños [22], sobre todo en los más pequeños [12] y en los adultos mayores de 46 años [23]. Las tasas de ototoxicidad en el niño varían de un 13 a un 96% [7, 12, 14, 15, 24-25], pero los menores de 5 años tienen una posibilidad 20 veces mayor de desarrollar hipoacusia que los de 15-20 años [14].

Aunque el daño ototóxico pudiera considerarse de menor importancia, frente a lo que significa la curación de un tumor maligno, dado el incremento de la supervivencia, el intento de minimizar los déficits funcionales es hoy en día una preocupación oncológica [26].

Al comenzar el daño ototóxico por los tonos agudos, la hipoacusia que se genera pasa desapercibida hasta que, al alterarse la inteligibilidad del habla, se pone en evidencia un problema de comunicación [27]. Presagiar qué pacientes experimentarán este daño, no es posible sin evaluar directamente la función auditiva [28]. La monitorización audiológica es el único procedimiento que detecta la ototoxicidad antes de hacerse sintomática [13-14, 29], permitiendo anteponerse a peores circunstancias.

Mediante la aplicación de un protocolo de monitorización auditiva en el paciente tratado con cisplatino [30], evaluaremos la incidencia y severidad de la hipoacusia en nuestro medio, identificando los principales predictores clínicos.

MATERIAL Y MÉTODO

Este trabajo ha sido aprobado por el Comité Ético de Investigación Clínica de nuestra Área

de Salud. Se trata de un estudio observacional y prospectivo de los 100 primeros pacientes remitidos desde el Servicio de Oncología de un hospital de tercer nivel, que aceptaron la evaluación del daño ototóxico por cisplatino, durante un periodo de 4 años (2013-2016), como único grupo de control.

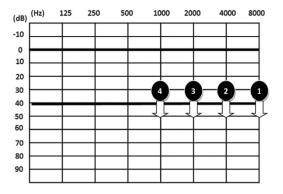
La instrumentación, seguimiento y criterios diagnósticos fueron expuestos en un trabajo previo [30] y disponemos de personal experto para realizar las pruebas auditivas. Los tratamientos con cisplatino siguen la terapia protocolizada de nuestra institución.

El programa para monitorizar la ototoxicidad por cisplatino cumple las directrices de la American Association of Speech-Language-Hearing Association (ASHA) [31], ratificadas por la American Academy os Audiology (AAA) [32]. Se basa en la información que damos al paciente sobre el objetivo propuesto y en las fases de evaluación (estudio basal, pruebas de monitorización y control postratamiento), resaltándose la importancia de protección frente al ruido y evitación de otros ototóxicos [30]. Para establecer el vínculo entre la hipoacusia y el cisplatino, realizamos una evaluación basal antes del tratamiento y dado el perfil del daño ototóxico, aplicamos como medios de exploración la audiometría de elevada frecuencia (AEF) y las otoemisiones acústicas (OEA) [32]. El control posterior se efectúa 24 horas antes de cada ciclo, a fin de que cualquier descenso temporal de la audición tenga tiempo suficiente de recuperación. Finalmente, una vez terminado el tratamiento, se continúa reevaluando la audición del paciente durante un periodo variable de años, en función de la edad y de la evolución clínica. La significación del menoscabo auditivo la clasificamos siguiendo los criterios de Brock [18] en 4 grados (Tabla 1).

Los datos se introdujeron en una base de Microsoft Access, elaborada para su explotación estadística, recogiéndose las características demográficas de cada paciente, los antecedentes de hipoacusia u otros otológicos, las pruebas efectuadas durante la

Tabla 1: En la tabla se expresa el significado de cada grado de Brock, indicando en el audiograma el incremento de grado a medida que se supera la intensidad de 40 dB HL desde 8 kHz hacia frecuencias progresivamente inferiores (4 - 2 y 1 kHz).

HIPOACUSIA NEUROSENSORIAL	GRADOS DE BROCK				
< 40 dB en todas las frecuencias.	0				
≥ 40 dB a 8.000 Hz sólo.	1				
≥ 40 dB a 4.000 Hz y por encima.	2 (Borden-line)				
≥ 40 dB a 2.000 Hz y por encima.	3 (> grado tolerable de toxicidad)				
≥ 40 dB a 1.000 Hz y por encima.	4				



evaluación basal, el tratamiento oncológico recibido y el grado de pérdida auditiva de cada oído antes y después del mismo.

Se presenta un análisis descriptivo de las variables de estudio. Las cuantitativas se representan con la media y la desviación típica y las cualitativas según su distribución en frecuencias. Mediante el test Chi-cuadrado de Pearson, se ha estudiado la asociación de las variables cualitativas. La comparación de los valores cuantitativos se ha realizado mediante la prueba T de Student o la alternativa no paramétrica U de Mann Whitney, según el caso. El grado de Brock inicial vs. el final, se ha examinado mediante la prueba de McNemar-Bowker. Los datos han sido desarrollados con el programa estadístico IBM SPSS Statistics versión 20.0 para Windows. Aquellos valores de p<0,05 son considerados estadísticamente significativos.

RESULTADOS

Características de los PACIENTES (Tabla 2)

En la Tabla 2 se muestran las particularidades demográficas de los 100 pacientes estudiados. Un total de 96 adultos y 4 niños, con predominio del número de varones (73%), donde el uso del cisplatino es más frecuente por la localización y mayor incidencia tumoral. El 80% de la población está comprendida entre 41 y 70 años, siendo la edad media de 59 años. Un tercio procede del medio rural.

Análisis audiométrico (Tabla 3)

Dieciséis pacientes iniciaron la evaluación una vez comenzado el tratamiento (control tardío), de los que 5 presentaban hipoacusia, de manera que la valoración basal pudo hacerse en el 95% del total. La distribución y el número de pruebas efectuadas, se refleja en la Tabla 3. En casi todos los casos realizamos un estudio basal auditivo con audiometría de elevada frecuencia (AEF) y a más de la mitad les hicimos también otoemisiones acústicas (OEA), transitorias o fundamentalmente productos de distorsión en forma de DPgrama. Durante el seguimiento, realizado antes de cada nuevo ciclo, utilizábamos la audiometría convencional y las OEA. De media y sin contar la exploración inicial, efectuamos unas 3,7 audiometrías y 1,5 OEA, a cada paciente.

EVALUACIÓN DEL EFECTO отото́хісо (Tabla 4)

La mayoría de los pacientes (66%) recibió de 3 a 6 ciclos de cisplatino (5,8 de media por paciente), con una dosis total acumulada que osciló entre 70 mg/m² (dosis mínima) y 1125 mg/m² (dosis máxima). Sin embargo, las dosis mínima y máxima que produjeron un cambio auditivo mensurable con la graduación de Brock, fueron de 200 mg/ m² (la mínima) y de 753 mg/m² (la máxima). La

Tabla 2: Características generales de los pacientes estudiados.

	FACTORES DEMOC	GRÁFICOS (100 pacientes)					
VARIABLE	NÚMERO	DE CASOS	PORCE	NTAJE			
Adultos	Ş	96	96%				
Niños (0 a 16 años)		4	4%				
Rangos de edad de adultos:							
17 a 30 años		3	3%				
31 a 40 años		7	79	6			
41 a 50 años	2	22	239	%			
51 a 60 años	2	27	289	%			
61 a 70años	3	31	320	%			
> 70 años		6	6%	6			
EDAD MEDIA	59 :	años					
Género:							
Masculino	7	73	739	%			
Femenino	2	27	27%				
Distribución de pacientes por años:	Inicio de tto.	Fin de tto.					
Antes de 2013	11	5	11%	5%			
2013	27	18	33%	18%			
2014	33	32	20%	32%			
2015	20	31	9%	31%			
2016	9	12		12%			
2017		2	DS: 278 días				
DURACIÓN MEDIA DEL TTO.	163,5	57 días	DS: 278	8 dias			
Lugar de origen:							
Valladolid ciudad		58	689				
Valladolid provincia	3	32	329	%			
Hipoacusia previa al tratamiento:							
Con hipoacusia	5	58	589	%			
Sin hipoacusia	4	12	420	%			
Edad media con hipo	61 :	años	p<0,	001			
Edad media sin hipo	42 :	años	P<0,				
Seguimiento postratamiento (octubre 2018)							
Éxitus	3	33	33%				
Control audiométrico > 3 años postratamiento:	1	17	17% (25% de supervivientes)				

dosis global media acumulada que modifica la audición es de 385 mg/m² y la que no modifica de 319 mg/m². La diferencia de sus medianas resulta estadísticamente significativa (p 0.025), (Figura 1).

Al 70% de los pacientes sólo se le administró cisplatino y un 30% recibió además RT en la cabeza. La dosis total acumulada media que modifica la audición solo con cisplatino es de 438 mg/m² y la de los pacientes que recibieron además RT desciende a 321 mg/m², siendo esta diferencia estadísticamente significativa (p 0,025), al sumarse la RT al efecto ototóxico (Tabla 4).

[221]

Tabla 3: Exploración auditiva. Se especifica el tipo y número de exploraciones realizadas durante la evaluación basal y el seguimiento de los 100 pacientes evaluados.

	PRUEBAS AUDITIVAS (100 Pacientes)	
VARIABLE	NÚMERO DE CASOS	PORCENTAJE
Evaluación Basal:		95%
Otoscopia	98	98 %
Timpanograma	98	98 %
Reflejos ipsilaterales estribo	73	73 %
Otoemisiones Transitorias	62	62 %
Productos de distorsión	71	71%
Audiometría alta frecuencia	94	94 %
Audiometría convencional	1	1 %
Pruebas en el seguimiento:		TOTAL
Audiometría tonal convencional:		
1 audio	23	23
2 audios	17	34
3 audios	18	54
4 audios	9	36
5 audios	9	45
6 audios	8	48
7 audios	7	49
8 audios	5	40
9 audios	3	27
10 audios	1	10
TOTAL	100 pacientes	366 audios.
Otoemisiones acústicas (OEA):		
0 OEA	20	0
1 OEA	53	53
2 OEA	11	22
3 OEA	6	18
4 OEA	2	8
5 OEA	2	10
6 OEA	3	18
7 OEA	2	14
8 OEA	0	0
9 OEA	1	9
TOTAL	100 pacientes	152 OEA.

En caso de audición normal, la dosis ototóxica media es superior respecto a los que presentan hipoacusia (aunque no es significativa: p 0,372), pero cuando se produce el cambio auditivo, este es significativamente mayor en los oídos normoacúsicos.

Otros factores de riesgo

En la Figura 2 se muestra el cambio de grado que experimentan los 200 oídos de los 100 pacientes evaluados después del tratamiento, observándose un incremento de los grados 2 a 4. La Figura 3

Tabla 4: Evaluación del efecto ototóxico del cisplatino y su significación estadística.

VARIABLE	NÚMEI	RO DE CASOS	MODIFICA	(35/100)	SIGNIFICA	ACIÓN ESTAI	DÍSTICA		
Tratamiento:									
Cisplatino		70	19/70 (2	27%)		0.025			
Cisplatino + RT		30	16/30 (5	53%)	p 0.025				
Globalmente		100	35/100 (35%)					
- Hombres		73	28/73 (3	38%)	M. de	:C - +: (0 :	2.47)		
- Mujeres		27	7/27 (2	6%)	No sig	nificativo (p 0,	24/)		
Afectación tardía (3-5 años post-QT)		17	5/17 (2	9%)					
Cisplatino		9	3/9 (17/51)= 3	6/70 (51%)					
Cisplatino + RT		8	2/8 (3,5/14)= 19	9,5/30 (65%)					
Globalmente		17	5/17 (19/65)= 5	4/100 (54%)					
MODIFICA audición:			Dosis media	modifica					
Cisplatino	19/	100 (19%)	438 mg	:/m²		0.005			
Cisplatino + RT	16/	100 (16%)	321 mg	z/m²		p 0.025			
Globalmente	35/100 (35%)		385 mg	z/m²					
NO MODIFICA 1: //	(5)	100 ((50/)	Dosis media N	O modifica					
NO MODIFICA audición :	65/	100 (65%)	319 mg	z/m ²					
Sin hipoacusia previa (42/100):	Nº oídos	Oídos modifica	Dosis media modifica	Brock previo	Brock final	Diferencia			
Global	84	24 (28%)	413 mg/m ²	0	2	2			
Cisplatino	62	13 (21%)	458 mg/m ²	0	1,7	1,7			
Cisplatino + RT	22	11 (50%)	359 mg/m ²	0	2,3	2,3	P<0,00		
Con hipoacusia previa (58/100):									
Global	108	33 (31%)	368 mg/m ²	1,45	2,3	0,85			
Cisplatino	78	18 (15%)	426 mg/m ²	1,3	2.2	0,9			
Cisplatino + RT	38	15 (39%)	298 mg/m ²	1,6	2,45	0,85			
Dosis total acumulada:									
≥ 400 mg/m ²		29	16/29 (5	55%)					
Cisplatino		24	12/24 (5	50%)					
Cisplatino + RT		5	4/5 (80	0%)		p 0.003			
< 400 mg/m ²		71	19/71 (2	27%)					
Cisplatino		46	7/46 (1	5%)					
Cisplatino + RT		25	12/25 (4	18%)					
Dosis máxima acumulada:	112	25 mg/m ²	753 mg	z/m²					
Dosis mínima acumulada:	70	0 mg/m ²	200 mg	z/m²					
Dosis media acumulada:	31	9 mg/m ²	385 mg	z/m²					
Dosis mediana acumulada:	0		329 mg	z/m²		p 0.003			
Simetría oídos (mismo	grado de Br	ock) con audición n	ormal que modificar	1:					
Modificación simétrica	-		9/13 (6						
Modificación asimétrica			4/13 (3 sin predomin	,					
Simetría de todos los que modifican:			23/35 (6						

[223]

refleja el efecto ototóxico en los oídos con hipoacusia previa.

Los pacientes afectados, con audición normal (13 pacientes), tienen un menoscabo simétrico en

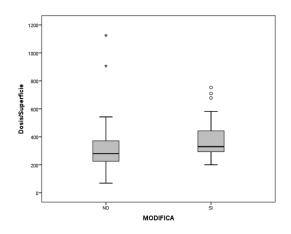


Figura 1: La diferencia entre la mediana de la dosis total acumulada que modifica, con la que no modifica la audición, es estadísticamente significativa (p 0.003).

el 69% (mismo grado de Brock en ambos oídos). La distribución asimétrica afecta a uno u otro oído por igual.

En el 77% de los que sufren un incremento de la hipoacusia (27% de la población total), el grado de deterioro es importante (grado de Brock \geq 2), sobre todo en quienes además del cisplatino recibieron RT; así, en los normoyentes, el grado de Brock \geq 2 aparece en el 43% de los tratados con cisplatino y en el 83% de quienes, además, reciben RT. Estas diferencias de grado antes y después del tratamiento son estadísticamente significativas (p 0,001).

EDAD

El perjuicio auditivo de los pacientes con edades comprendidas entre 11 y 40 años es menor que en niños (< 11 años) y que, en adultos con más de 40 años, sin embargo, las diferencias encontradas, no son significativas (p 0,109), en gran medida porque la población infantil de esta muestra es muy pequeña para poder establecer relaciones.

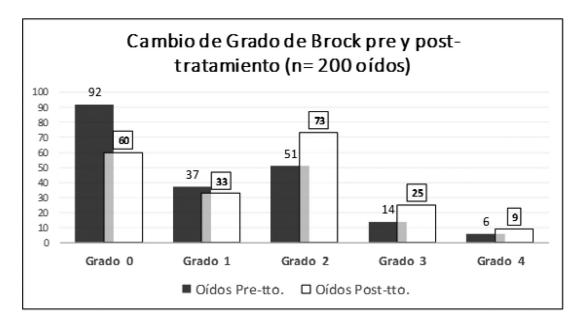


Figura 2: Se observa la modificación del grado de Brock que experimentan los 200 oídos examinados, antes y después del tratamiento ototóxico. Tras el tratamiento (rectángulos blancos), se incrementan los grados 2 a 4, disminuyendo los grados 0 y 1.

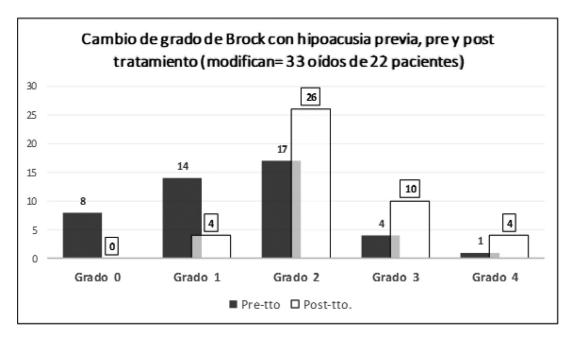


Figura 3: En el 31% de los oídos con hipoacusia previa (33 oídos de 108), se produce un incremento de la misma tras el tratamiento, experimentando una pérdida global de casi 1 grado de Brock, pasando la mayoría, como se ve en la imagen, del grado 1-2 (rectángulos negros) al 2-3 (rectángulos blancos).

Género

No sólo hay un predominio de hombres sobre mujeres entre los pacientes tratados con cisplatino, sino que el porcentaje de ototoxicidad relativo es mayor en los hombres que en las mujeres (38/26%), aunque esta diferencia no resulte significativa (p 0,247).

AUDICIÓN PREVIA

Evaluando cada oído aisladamente, hemos analizado los que sufrían un cambio en la graduación de Brock.

Un 58% de pacientes tiene hipoacusia antes de iniciar el tratamiento ototóxico (con una edad media de 61 años), unilateral en 8 casos y bilateral en los otros 50. Los que sufren daño ototóxico, pasan tras el tratamiento a un grado de Brock que se incrementa en promedio 0,9 partes de grado independientemente de que reciban o no RT.

A los sujetos afectados de ototoxicidad con audición previa normal (42% de nuestra población, con edad media de 42 años), el cisplatino les provocaba una modificación de 1,7 grados y si recibían RT el cambio promedio era de 2,3 grados.

Es decir, aunque como hemos visto la hipoacusia previa incrementa la vulnerabilidad ototóxica por cisplatino, el grado de afectación, cuando aparece, es mayor si la audición es normal (p <0,001).

RADIOTERAPIA EN LA CABEZA

Treinta pacientes recibieron además de la medicación con cisplatino, radioterapia en la cabeza. Si comparamos los que empeoraron su audición tras el tratamiento exclusivo de cisplatino (27%), con quienes la modificaron al recibir además de cisplatino, radioterapia (53%), encontramos que esta diferencia es significativa (p 0,025) (Tabla 4).

Además, la dosis total acumulada media a la que se modifica la audición con cisplatino es de 438 mg/m² y de 321 mg/m² si además del cisplatino se usa RT en la cabeza.

EFECTOS A LARGO PLAZO (Tabla 2)

En octubre 2018, un año y medio después de terminarse el último tratamiento de quimioterapia (28-3-2017), realizamos un nuevo control de los pacientes estudiados, comprobando un 33% de éxitus. A 17 pacientes (25% de los supervivientes) les pudimos evaluar auditivamente con un margen de entre 3 y 5 años postratamiento. Un 33% de los que no habían modificado su audición, se afectaron durante este periodo (con una edad media de 51 años), incrementándose la hipoacusia en el 20% de los que la habían sufrido al final del tratamiento. Por tanto, la pérdida auditiva podría llegar a alcanzar a lo largo del tiempo a más del 50% de los pacientes tratados.

DISCUSIÓN

Estudiamos la ototoxicidad de 100 pacientes, que recibieron cisplatino como parte del tratamiento de su proceso oncológico, con una edad media de 59 años, similar a la de otros estudios [33], observando una incidencia global de hipoacusia del 35% (que puede ascender por encima del 50% a lo largo de los años), siendo de grado moderado/severo (grado de Brock ≥ 2) en el 83% de los oídos. La variabilidad interindividual al daño ototóxico por cisplatino, su inicio en la zona basal de la cóclea que facilita el pasar desapercibido hasta que ya tiene consecuencias clínicas importantes y su irreversibilidad, justifican la conveniencia de monitorizar la ototoxicidad a fin de asegurar una detección temprana [9].

En la evaluación basal procuramos obtener una audiometría de elevada frecuencia (AEF), pero el seguimiento se realiza fundamentalmente con la audiometría convencional y con las OEA si se trata de pacientes normoyentes. Aunque se supone que la AEF es el procedimiento más sensible para detectar los cambios ototóxicos iniciales [34], es una prueba larga y compleja, que suele resultarle muy pesada al paciente oncológico y donde, al no existir un rango de normalidad, cada individuo debe ser su propio control. Podríamos utilizarla siguiendo los criterios ASHA, 1994 [31], evaluando la pérdida de respuesta en 3 frecuencias consecutivas, donde se obtenían previamente, pero su principal limitación es la falta de un gradiente que refiera la severidad de la hipoacusia adquirida o el impacto clínico sobre el paciente [30]. Por estos motivos, aunque la AEF nos ha resultado útil en la evaluación basal, para obtener nuestros patrones de normalidad, no la hemos aplicado en el control posterior de los pacientes. Sin embargo, la realización de unas OEA sólo demanda unos minutos, no requiere la participación activa del sujeto y la prueba refleja específicamente el estado coclear de las células ciliadas externas [32, 35]. Aplicando las OEA en forma de Productos de Distorsión y obteniendo el DP-grama, los cambios ototóxicos podrían detectarse incluso antes, que con la audiometría convencional y de forma más rápida y cómoda para el paciente [34, 36]. Sin embargo, dada su escasa amplitud acústica, la presencia de cualquier problema concomitante en el oído medio (muy frecuente en la edad infantil), hace que se alteren o desaparezcan. Además, uno de sus mayores inconvenientes es la variabilidad en la interpretación de los resultados, al no existir acuerdo respecto a un criterio que fije la medida del cambio producido por el efecto ototóxico [34, 35], por lo que actualmente su utilidad radica en acompañar a otra prueba audiológica como la audiometría de tonos puros, ofreciendo una evaluación complementaria, cuyos resultados, aún por estudiar, no hemos considerado en este trabajo. Sería deseable estandarizar un protocolo de seguimiento audiológico, aceptado de forma general, rápido y sencillo de aplicar, especialmente en los niños y en aquellos pacientes que tuvieran comprometido su estado general o cognitivo.

[226]

Habiéndose propuesto diferentes pautas para determinar cuándo se puede hablar de cambio audiométrico producido por la ototoxicidad, la regla más ampliamente utilizada es la de la Academia Americana [31, 32], si bien este criterio de detección precoz no expresa el grado de deterioro que ha producido el efecto ototóxico, al no ser específico de frecuencia. Una de las causas de variabilidad en la incidencia publicada de ototoxicidad se debe a los diferentes procedimientos de graduación utilizados [37]. Mientras unos la clasifican por el descenso de umbral experimentado, otros lo hacen por el de la pérdida auditiva existente, lo que en función de la línea basal puede dar resultados dispares. Aunque lo ideal es obtener esta línea basal pretratamiento, como referencia de los cambios auditivos observados, en algunas ocasiones resulta muy difícil, por falta de cooperación, retraso cognitivo, etc. [35]. Para expresar la magnitud del daño coclear ototóxico, nosotros hemos aplicado la escala de Brock [18], muy utilizada en los estudios de ototoxicidad por cisplatino [7, 12, 13, 17, 18, 23-25, 29, 34], pues se centra en las frecuencias agudas, que es por donde se inicia la pérdida auditiva. La graduación es muy sencilla en función del audiograma tonal obtenido, con independencia del descenso de umbral que se haya producido respecto a la línea basal (Tabla 1). En los niños, donde una pérdida inferior a 40 dB podría tener repercusiones, se puede aplicar la escala de Chang [38], que categoriza con mayor precisión los distintos grados. Dada la dificultad que representa expresar la pérdida auditiva reflejada en un audiograma, estas escalas ofrecen la posibilidad de clasificarla en función de su severidad, lo que nos permite trasladárselo al oncólogo de manera objetiva y mucho más comprensible; sin embargo, consideramos necesario la estandarización de una fórmula de graduación aceptada de forma general, que facilite la comparación de las diferentes investigaciones.

FACTORES DE RIESGO

A la hora de evaluar los resultados, además de la disparidad en la forma de definir la ototoxicidad y graduar el daño, no es infrecuente la falta de correlación de los datos audiométricos pre y postratamiento, la variabilidad en el tiempo de seguimiento y en el polimorfismo de los grupos de estudio, lo que dificulta aún más, poder conocer la relativa importancia de los factores de riesgo añadidos [19].

Mayoritariamente se acepta que la dosis total acumulada es el principal factor de riesgo en la ototoxicidad por cisplatino [7, 12, 17, 18, 23, 29]. Coincidiendo con nuestros resultados están los de Stavroulaki et al. (2001) [39] y Biro et al. (2006) [40], que expresan un cambio de umbral a partir de una dosis total acumulada media de cisplatino de 350 a 400 mg/m²; aunque de manera general se considera que el umbral en adultos está en 600 mg/m² [15]. En los niños, el nivel de toxicidad es más bajo, a partir 400 mg/m² de dosis total acumulada [29].

Cuando se asocia la radioterapia de cabeza al tratamiento con cisplatino, es mayor la vulnerabilidad y severidad de la hipoacusia neurosensorial [19, 41]. Puesto que ambos son ototóxicos, el resultado final dependerá de la dosis del cisplatino y de la intensidad de la RT aplicada. La incidencia de hipoacusia neurosensorial después del tratamiento con RT en la cabeza varía en la literatura del 0 al 43%, incrementándose del 17 al 88% si se combina con cisplatino [19]. En nuestros resultados, el tratamiento conjunto ha producido una tasa general de hipoacusia del 53%, similar a la de otros autores [41], pudiendo incrementarse a lo largo del tiempo hasta en un 65%.

El daño por cisplatino es mucho más intenso en oídos normoyentes que en hipoacúsicos, lo que representa un hallazgo bastante original y claramente significativo de nuestros resultados.

Aun utilizando los datos clínicos más actualizados para desarrollar modelos de regresión que predigan la contingencia de la ototoxicidad por

[227]

cisplatino en base a diferentes variables, su funcionamiento sólo es útil para calcular el riesgo medio de una población, pero no lo es, para conocer lo que ocurrirá en un paciente concreto [14-15]. Seguramente, la precisión de estos patrones se incrementaría, si se pudieran tener en cuenta los marcadores genéticos [20]. En los últimos años la industria farmacéutica ha puesto además un especial énfasis en el desarrollo de sustancias protectoras del oído interno frente a los efectos ototóxicos del cisplatino. Es posible que en el futuro se pueda aplicar un tratamiento personalizado, quizá basado en la identificación de genotipos de alto riesgo, que permita asegurar la prevención de la ototoxicidad [14].

CONCLUSIONES

Nuestros resultados confirman la importancia del daño auditivo inducido por cisplatino y su incremento en caso de asociar RT en la cabeza, llegando a afectar a un 35% de pacientes y posiblemente a más del 50% a largo plazo. La susceptibilidad al daño ototóxico, el inicio clínicamente insidioso y su irreversibilidad, justifican la conveniencia de monitorizar la ototoxicidad por cisplatino. En general, afecta simétricamente a ambos oídos y de manera más intensa si la audición es normal. En nuestro estudio, ni el género, ni la edad, son responsables de diferencias estadísticamente significativas respecto al daño ototóxico, que depende fundamentalmente de la dosis total acumulada.

AGRADECIMIENTOS

El control y seguimiento auditivo de la ototoxicidad por cisplatino es llevado a cabo por enfermeras de nuestro servicio, especializadas en técnicas audiométricas, que junto a su conocimiento saben aplicar el buen hacer con este tipo de pacientes.

BIBLIOGRAFÍA

1. Maru D, Malky GA. Current practice of ototoxicity management across the United Kingdom

- (UK). Int J Audiol. 2018 Apr 20:1-13. doi: 10.1080/14992027.2018.1460495.
- 2. Garinis AC, Cornell A, Allada G, Fennelly KP, Maggiore RJ, Konrad-Martin D. Ototoxicity monitoring through the eyes of the treating physician: Perspectives from pulmonology and medical oncology. Int J Audiol. 2017 Oct 5:1-6. doi: 10.1080/14992027.2017.1381769.
- Theunissen EA, Zuur CL, Józwiak K, Lopez-Yurda M, Hauptmann M, Rasch CR, et al. Prediction of Hearing Loss Due to Cisplatin Chemoradiotherapy. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg. 2015 Sep;141(9):810-5. doi: 10.1001/ jamaoto.2015.1515.
- Marco-Algarra J, Basterra J, Marco J. Cis-diaminedichloro platinum ototoxicity. An experimental study. Acta Otolaryngol. 1985 Mar-Apr;99(3-4):343-7.
- Grewal S, Merchant T, Reymond R, McInerney M, Hodge C, Shearer P. Auditory late effects of childhood cancer therapy: a report from the Children's Oncology Group. Pediatrics. 2010 Apr;125(4):e938-50. doi: 10.1542/peds.2009-1597.
- García-Berrocal JR, Nevado J, González-García JA, Sánchez-Rodríguez C, Sanz R, Trinidad A, et al. Heat shock protein 70 and cellular disturbances in cochlear cisplatin ototoxicity model. J Laryngol Otol. 2010 Jun;124(6):599-609. doi: 10.1017/S0022215110000496.
- 7. Helt-Cameron J, Allen PJ. Cisplatin ototoxicity in children: implications for primary care providers. Pediatr Nurs. 2009 Mar-Apr;35(2):121-7.
- Sakamoto M, Kaga K, Kamio T. Extended highfrequency ototoxicity induced by the first administration of cisplatin. Otolaryngol Head Neck Surg. 2000 Jun;122(6):828-33.
- Yu KK, Choi CH, An YH, Kwak MY, Gong SJ, Yoon SW, Shim HJ. Comparison of the effectiveness of monitoring Cisplatin-induced ototoxicity with extended high-frequency pure-tone audiometry or distortion-product otoacoustic emission. Korean J Audiol. 2014 Sep;18(2):58-68. doi: 10.7874/kja.2014.18.2.58.
- 10. Einarsson EJ, Petersen H, Wiebe T, Fransson PA, Grenner J, Magnusson M, et al. Long term hearing degeneration after platinum-based chemotherapy

[228]

INCIDENCIA Y FACTORES DE RIESGO EN LA OTOTOXICIDAD POR CISPLATINO BENITO-OREJAS J I ET AL.

- in childhood. Int J Audiol. 2010 Oct;49(10):765-71. doi: 10.3109/14992027.2010.485595.
- 11. Schmidt CM, Knief A, Lagosch AK, Deuster D, am Zehnhoff-Dinnesen A. Left-right asymmetry in hearing loss following cisplatin therapy in children--the left ear is slightly but significantly more affected. Ear Hear. 2008 Dec;29(6):830-7. doi: 10.1097/AUD.0b013e31818005a4.
- 12. Yancey A, Harris MS, Egbelakin A, Gilbert J, Pisoni DB, Renbarger J. Risk factors for cisplatin-associated ototoxicity in pediatric oncology patients. Pediatr Blood Cancer. 2012 Jul 15;59(1):144-8. doi: 10.1002/pbc.24138.
- Knight KR, Kraemer DF, Neuwelt EA. Ototoxicity in children receiving platinum chemotherapy: underestimating a commonly occurring toxicity that may influence academic and social development. J Clin Oncol. 2005 Dec 1;23(34):8588-96.
- Langer T, am Zehnhoff-Dinnesen A, Radtke S, Meitert J, Zolk O. Understanding platinuminduced ototoxicity. Trends Pharmacol Sci. 2013 Aug;34(8):458-69. doi: 10.1016/j.tips.2013.05.006.
- 15. Bokemeyer C, Berger CC, Hartmann JT, Kollmannsberger C, Schmoll HJ, Kuczyk MA, et al. Analysis of risk factors for cisplatin-induced ototoxicity in patients with testicular cancer. Br J Cancer. 1998 Apr;77(8):1355-62.
- DeBacker JR, Harrison RT, Bielefeld EC. Long-Term Synergistic Interaction of Cisplatin- and Noise-Induced Hearing Losses. Ear Hear. 2017 May/Jun;38(3):282-291. doi: 10.1097/ AUD.00000000000000391.
- Brooks B, Knight K. Ototoxicity monitoring in children treated with platinum chemotherapy. Int J Audiol. 2017 Jul 24:1-7. doi: 10.1080/14992027.2017.1355570.
- Brock PR, Bellman SC, Yeomans EC, Pinkerton CR, Pritchard J. Cisplatin ototoxicity in children: a practical grading system. Med Pediatr Oncol. 1991;19(4):295-300.
- 19. Theunissen EA, Bosma SC, Zuur CL, Spijker R, van der Baan S, Dreschler WA, et al. Sensorineural hearing loss in patients with head and neck cancer after chemoradiotherapy and radiotherapy: a systematic review of the literature. Head Neck. 2015 Feb;37(2):281-92. doi: 10.1002/hed.23551.

- Olgun Y, Aktaş S, Altun Z, Kırkım G, Kızmazoğlu DÇ, Erçetin AP, et al. Analysis of genetic and non genetic risk factors for cisplatin ototoxicity in pediatric patients. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2016 Nov;90:64-69. doi: 10.1016/j.ijporl.2016.09.001.
- 21. Coradini PP, Cigana L, Selistre SG, Rosito LS, Brunetto AL. Ototoxicity from cisplatin therapy in childhood cancer. J Pediatr Hematol Oncol. 2007 Jun;29(6):355-60.
- 22. Helson L, Okonkwo E, Anton L, Cvitkovic E. cis-Platinum ototoxicity. Clin Toxicol. 1978;13(4):469-78.
- 23. Li Y, Womer RB, Silber JH. Predicting cisplatin ototoxicity in children: the influence of age and the cumulative dose. Eur J Cancer. 2004 Nov;40(16):2445-51.
- 24. Brock PR, Knight KR, Freyer DR, Campbell KC, Steyger PS, Blakley BW, et al. Platinum-induced ototoxicity in children: a consensus review on mechanisms, predisposition, and protection, including a new International Society of Pediatric Oncology Boston ototoxicity scale. J Clin Oncol. 2012 Jul 1;30(19):2408-17. doi: 10.1200/ JCO.2011.39.1110.
- 25. Clemens E, de Vries AC, Pluijm SF, Am Zehnhoff-Dinnesen A, Tissing WJ, Loonen JJ, et al.; DCOG-LATER, The Netherlands. Determinants of ototoxicity in 451 platinum-treated Dutch survivors of childhood cancer: A DCOG late-effects study. Eur J Cancer. 2016 Dec;69:77-85. doi: 10.1016/j.ejca.2016.09.023.
- 26. Konrad-Martin D, Reavis KM, McMillan G, Helt WJ, Dille M. Proposed comprehensive ototoxicity monitoring program for VA healthcare (COMP-VA). J Rehabil Res Dev. 2014;51(1):81-100. doi: 10.1682/JRRD.2013.04.0092.
- 27. Fausti SA, Wilmington DJ, Helt PV, Helt WJ, Konrad-Martin D. Hearing health and care: the need for improved hearing loss prevention and hearing conservation practices. J Rehabil Res Dev. 2005 Jul-Aug;42(4 Suppl 2):45-62.
- 28. Konrad-Martin D, James KE, Gordon JS, Reavis KM, Phillips DS, Bratt GW, et al. Evaluation of audiometric threshold shift criteria for ototoxicity monitoring. J Am Acad Audiol.

INCIDENCIA Y FACTORES DE RIESGO EN LA OTOTOXICIDAD POR CISPLATINO BENITO-OREJAS J I ET AL.

- 2010 May;21(5):301-14; quiz 357. doi: 10.3766/jaaa.21.5.3.
- 29. Bertolini P, Lassalle M, Mercier G, Raquin MA, Izzi G, Corradini N, Hartmann O. Platinum Compound-Related Ototoxicity in Children: Long-Term Follow-Up Reveals Continuous Worsening of Hearing Loss. J Pediatr Hematol Oncol. 2004 Oct;26(10):649-655.
- Sánchez-Martínez A, Benito-Orejas J, Tavárez-Rodríguez J, Hernández-Santos M, Morais-Pérez D, Soto-Prado D. Monitorización de la ototoxicidad por cisplatino. Revista ORL [Internet]. 1 Mar 2018 [citado 9 Ago 2018]; 9(1): 25-33. Disponible en: http://revistas.usal.es/index.php/2444-7986/article/view/16774.
- 31. American Speech-Language-Hearing Association. Audiologic management of patients receiving cochleotoxic drug therapy [guidelines]. https://www.asha.org/policy/GL1994-00003.htm. (1994). Accessed 6 Agosto 2018.
- 32. American Academy of Audiology. American Academy of Audiology Position Statement and guidelines: Ototoxicity monitoring. https://audiologyweb.s3.amazonaws.com/migrated/OtoMon-Guidelines.pdf_539974c40999c1.58842217.pdf. (2009). Accessed 6 Agosto 2018.
- 33. Caballero M, Mackers P, Reig O, Buxo E, Navarrete P, Blanch JL, et al. The Role of Audiometry prior to High-Dose Cisplatin in Patients with Head and Neck Cancer. Oncology. 2017;93(2):75-82. doi: 10.1159/000468522.
- 34. Knight KR, Kraemer DF, Winter C, Neuwelt EA. Early changes in auditory function as a result of platinum chemotherapy: use of extended

- high-frequency audiometry and evoked distortion product otoacoustic emissions. J Clin Oncol. 2007 Apr 1;25(10):1190-5.
- Campbell KCM, Le Prell CG. Drug-Induced Ototoxicity: Diagnosis and Monitoring. Drug Saf. 2018 May;41(5):451-464. doi: 10.1007/s40264-017-0629-8.
- Lonsbury-Martin BL, Martin GK. Evoked otoacoustic emissions as objective screeners for ototoxicity. Semin Hearing. 2001;22(4):377-91.
- 37. Crundwell G, Gomersall P, Baguley DM. Ototoxicity (cochleotoxicity) classifications: A review. Int J Audiol. 2016;55(2):65-74. doi: 10.3109/14992027.2015.1094188.
- Chang KW, Chinosornvatana N. Practical grading system for evaluating cisplatin ototoxicity in children. J Clin Oncol. 2010 Apr 1;28(10):1788-95. doi: 10.1200/JCO.2009.24.4228.
- 39. Stavroulaki P, Apostolopoulos N, Segas J, Tsakanikos M, Adamopoulos G. Evoked otoacoustic emissions--an approach for monitoring cisplatin induced ototoxicity in children. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2001 May 31;59(1):47-57.
- Biro K, Noszek L, Prekopp P, Nagyiványi K, Géczi L, Gaudi I, et al. Characteristics and risk factors of cisplatin-induced ototoxicity in testicular cancer patients detected by distortion product otoacoustic emission. Oncology. 2006;70(3):177-84
- 41. Cheraghi S, Nikoofar P, Fadavi P, Bakhshandeh M, Khoie S, Gharehbagh EJ, et al. Short-term cohort study on sensorineural hearing changes in head and neck radiotherapy. Med Oncol. 2015 Jul;32(7):200. doi: 10.1007/s12032-015-0646-3.

ARTÍCULO ORIGINAL

REPERCUSIÓN DEL ACÚFENO EN PACIENTES CON ENFERMEDAD DE MÉNIÈRE

Impact of Tinnitus in Patients with Ménière's Disease

Estela Cristina PRIETO-MAILLO¹; Sofía FERREIRA-CENDÓN²; María José FERNÁNDEZ-NAVA²; Ramón Antonio MARTÍNEZ-CARRANZA²; José Carlos GÓMEZ-SÁNCHEZ³; Ángel BATUECAS-CALETRÍO²

¹Facultad de Medicina. Universidad de Salamanca. España.

²Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de cabeza y cuello. Unidad de Otoneurología.. Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Salamanca. España.

³Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Servicio de Neurología. Instituto de Investigación Biomédica de Salamanca (IBSAL). Salamanca. España.

Correspondencia: sofi_ferreira@hotmail.com

Fecha de recepción: 8 de febrero de 2021 Fecha de aceptación: 6 de abril de 2021 Fecha de publicación: 8 de abril de 2021

Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

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 acúfeno conforma junto con los episodios de vértigo, hipoacusia neurosensorial y la sensación de plenitud ótica los síntomas cardinales de la Enfermedad de Ménière. No alcanzando la importancia que le corresponde en el manejo de esta enfermedad, el acúfeno repercute profundamente en la vida de los pacientes, sobre todo en la esfera psicológica. Método: Se seleccionaron 15 pacientes con Enfermedad de Ménière diagnosticados según los criterios de la Sociedad de Bárány en Hospital Universitario de Salamanca. Se registraron variables específicas para el análisis de los síntomas cardinales de la enfermedad de Ménière. Se recogieron datos sobre la edad de aparición y años de evolución de la enfermedad y de la misma manera para el acúfeno, la afectación bilateral o unilateral de la misma y en este último supuesto, el oído afecto. Se sometió a los pacientes a estudio audiométrico junto con acufenometría. Se valoraron los principales parámetros definitorios del acúfeno: frecuencia (Hz), intensidad (dB), umbral de

[231]

enmascaramiento (dB) e inhibición residual (segundos). Los pacientes realizaron el test Tinnitus Handicap Inventory (THI) y Escala visual analógica (VAS). La valoración de alteraciones en el estado de ánimo se obtuvo a través de la Escala Hospitalaria de Ansiedad y Depresión (HADS). Resultados: La edad media de diagnóstico de la Enfermedad de Ménière es 47,47 años. Las medias de pérdida auditiva en cada frecuencia por la enfermedad de Ménière se sitúan en torno a los 50 dB. El acúfeno no predomina en ninguno de los oídos (p>0,05). Se determinó una relación fuertemente significativa entre THI y VAS (r=0,72; p<0,01). Tanto THI como VAS no se relacionaron con los valores de la media de las pérdidas auditivas de ambos oídos. Los pacientes con más de dos años de evolución de la enfermedad se corresponden estadísticamente con puntuaciones mayores en THI y en la subescala de depresión del HADS (r= 0,821; p=0,001). Discusión: La intensidad del acúfeno, cuantificada de manera subjetiva con THI, no se relaciona con el grado de pérdida auditiva en los pacientes con Enfermedad de Ménière. El estudio de la esfera psicológica a través de la escala HADS demuestra la existencia de trastornos del ánimo en estos pacientes, prevaleciendo la patología depresiva en aquellos que presentan acúfenos de larga evolución.

PALABRAS CLAVE: Enfermedad de Méniere; acúfenos; depresión; ansiedad; pérdida auditiva

SUMMARY: Introduction and objective: Tinnitus, with concurrent episodes of vertigo, neurosensorial hearing loss and aural fullness are the cardinal symptoms of Ménière Disease. Not achieving the importance it deserves in the management of the disease, tinnitus has a relevant impact on the lives of patients, especially in the psychological sphere. Method: Fifteen patients with Ménière's disease were selected according to the Bárány Society diagnostic criteria at the University Hospital of Salamanca. Specific variables were recorded for the analysis of the cardinal symptoms of Ménière's disease. Facts about the age of onset and years of disease evolution were collected and in the same strategy for tinnitus, bilateral or unilateral involvement of the disease and in the latter case, the affected ear. Patients were subjected to audiometric test and tinnitus matching. The main parameters defining tinnitus were assessed: frequency (Hz), intensity (dB), minimum masking level (dB) and residual inhibition (seconds). Tinnitus Handicap Inventory (THI) and Visual Analogue Scale (VAS) were performed to determine tinnitus severity. The assessment of mental symptoms was obtained through the Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS). Results: Ménière's disease is diagnosed at the mean age of 47.47 years. The average hearing loss at each frequency due to Ménière's disease is approximately 50 dB. Tinnitus is not prevailing in any of the ears (p>0.05). A significant correlation was found between THI and VAS (r=0.72; p<0.01). Both, THI and VAS, were not related to mean values of hearing loss in either ears. Patients with over two years of disease evolution are associated with higher scores on the THI and HADS depression subscales (r=0.821; p=0.001). Discussion: The intensity of tinnitus, quantified subjectively with THI, is not related to hearing loss in patients with Ménière's disease. The study of the psychological sphere through the HADS demonstrates certain predominance of depressive pathology in patients who present longstanding tinnitus.

KEYWORDS: Mèniere's disease; tinnitus; depression; anxiety; hearing loss

[232]

INTRODUCCIÓN

La enfermedad de Ménière (EM) es un trastorno del oído interno, que se presenta clínicamente como episodios espontáneos de vértigo y recurrentes, hipoacusia neurosensorial fluctuante, acúfenos y sensación de plenitud ótica [1, 2]. Su

prevalencia oscila entre 50-200/100000 adultos y es más común entre la cuarta y sexta década de la vida [3]. Se produce por un aumento de volumen y presión de la endolinfa que en el laberinto anterior ocasiona hipoacusia y acúfenos; y en el laberinto posterior alteración del equilibrio. Este aumento de presión endolinfática repercute sobre los receptores

sensoriales del oído interno situados en las paredes del laberinto membranoso, pudiendo romper la pared del laberinto, mezclando la endolinfa y perilinfa [4, 5].

Es de etiología desconocida, aunque se conocen factores de riesgo asociados como: anormalidades anatómicas, predisposición genética, alteraciones inmunológicas, lesiones vasculares laberínticas e incluso relación con virus herpes I y II o citomegalovirus [5].

Típicamente se presenta con sintomatología unilateral, aunque puede llegar a bilateralizarse, lo que agrava el pronóstico funcional [5].

La historia natural de la EM es progresiva y fluctuante. Los ataques de vértigo son más numerosos e intensos en los primeros y sus períodos de remisión varían de meses a años pudiendo llegar a desaparecer. Los ataques de vértigo se caracterizan por ser espontáneos, rotatorios, con una duración entre 20 minutos a varias horas, acompañados de cortejo vegetativo y nistagmo horizontorrotatorio [6].

El diagnóstico se basa en la clínica. Se debe descartar patología de origen central mediante exploración neurológica. En la audiometría se constata una hipoacusia neurosensorial con reclutamiento positivo predominando en graves en fases iniciales y evoluciona con el tiempo a una hipoacusia pantonal, estabilizándose en los 60-70 dB de pérdida [5, 6].

Actualmente, se consideran dos categorías diagnósticas: EM definida y probable [2].

La EM definida se caracteriza por:

- A. Dos o más episodios de vértigo espontáneo, con una duración entre 20 minutos y 12 horas.
- B. Hipoacusia neurosensorial de frecuencias bajas y medias documentada con audiometría en un oído, definiendo el oído afectado en al menos una ocasión antes, durante o después de uno de los episodios de vértigo.
- C. Síntomas auditivos fluctuantes (hipoacusia, acúfenos o plenitud) en el oído afectado.

D. No existe otro diagnóstico vestibular que explique mejor los síntomas.

La EM probable presenta los siguientes aspectos:

- A. Dos o más episodios de vértigo o mareo, con una duración entre 20 minutos y 24 horas.
- B. Síntomas auditivos fluctuantes (hipoacusia, acúfenos o plenitud ótica) en el oído afec-
- C. No existe otro diagnóstico vestibular que explique mejor los síntomas.

Los objetivos del tratamiento de la EM son reducir los ataques de vértigo y mejorar la calidad de vida del paciente, incidiendo en factores desencadenantes, estilo de vida o dieta. El tratamiento farmacológico en la fase aguda de las crisis incluye sedantes vestibulares. Posterior a la misma se prescriben diuréticos que regulan el volumen endolinfático o agonistas parciales de receptor H1 como la betahistina [5].

El apoyo psicológico constituye una herramienta importante en el tratamiento del paciente con EM. Es de gran utilidad la realización de encuestas que evalúen la situación psicológica del paciente y su propia percepción sobre la enfermedad, como por ejemplo, la escala hospitalaria de ansiedad y depresión (Hospital Anxiety and Depresion Scale, HAD) [6].

Los acúfenos, problema cardinal de la EM, son el resultado de una actividad anómala en la vía auditiva desde la cóclea a la corteza cerebral. En la EM, la tonalidad es inicialmente de baja frecuencia, concordante con las características de la hipoacusia. Se explica por el daño provocado en la estría vascular, responsable de la producción de endolinfa. La alteración de la homeostasis de la endolinfa aumenta la concentración de K+ extracelular que rodea las dendritas aferentes del nervio auditivo, generando un aumento en las descargas neuronales. Los acúfenos pueden preceder a las crisis vertiginosas, incrementando su intensidad o tono durante la misma [6-8].

Diversos cuestionarios han sido utilizados para medir cuantitativa y cualitativamente el acúfeno, pero es el estudio de las características psicoacústicas del acúfeno (intensidad, frecuencia, nivel mínimo de enmascaramiento, inhibición residual) lo que nos permite conocer el impacto del mismo en la vida diaria del paciente [8-10]. El test más aceptado, Tinnitus Handicap Inventory (THI), analiza la función mental y social, el área emocional y la incapacidad del paciente y su propia percepción frente a la enfermedad [11].

En algunos estudios los acúfenos aparecen al inicio de la enfermedad en más de la mitad de los pacientes estudiados; y son descritos como el síntoma más molesto y problemático, sobre todo en aquellos pacientes con EM de larga evolución [1, 12, 13] asociándose a un menor nivel de calidad de vida relacionada con la enfermedad [14]. Pueden conducir a problemas psicológicos, como ansiedad o depresión [15-17]. También pueden generar dificultades en la comprensión verbal, alteraciones del sueño o problemas de concentración.

El acúfeno es responsable del cambio o abandono del trabajo en el 30% de los pacientes, mientras que el 15% se ve forzado a dejar de conducir [17-19]. Por todo ello, la adquisición de un mejor conocimiento de las características del acúfeno y sus asociaciones podría repercutir de manera directa en una mejora de la calidad de vida de estos pacientes.

Los objetivos de este estudio son conocer la intensidad del acúfeno, en base al THI, en una muestra aleatoria de pacientes con EM, comprender la repercusión, en términos de ansiedad y depresión, del acúfeno en pacientes con EM, a través de la HADS y estudiar si existe relación entre la pérdida de audición y la intensidad del acúfeno en pacientes con EM.

MATERIAL Y MÉTODO

Se realiza un estudio descriptivo prospectivo. Se recogen los datos de una muestra aleatoria de pacientes con EM diagnosticados según los criterios

de la Sociedad de Bárány en Hospital Universitario de Salamanca. Se recogen las variables demográficas de edad, género y antecedentes familiares de EM. Dentro de las variables específicas se registran: edad de aparición de la enfermedad, años de evolución de la misma, enfermedad unilateral o bilateral y si es unilateral, el oído afecto.

Respecto a la hipoacusia, se registra el subtipo clínico (sincrónica o diacrónica), grado de hipoacusia según su audiometría tonal liminar (ATL), media de pérdida auditiva en frecuencias de 500, 1000, 2000 y 4000 Hz (Pure Tone Average, PTA).

Del acúfeno se tiene en cuenta la edad de aparición y años de evolución, afectación uni o bilateral y además se realiza una acufenometría que valora de manera psicoacústica la intensidad (dB), frecuencia a la que se localiza (Hz), tipo de ruido percibido, umbral de enmascaramiento (dB) e inhibición residual (segundos). Se elige el oído con mejor audición en el caso de acúfenos bilaterales o el oído contrario si es unilateral.

Por último, se determinan las variables escala: escala analógica visual (siglas en inglés: VAS), Tinnitus Handicap Inventory (THI), Hospital Anxiety and Depression Scale global (HADS) y desglose de subescalas ansiedad y depresión.

El THI permite al médico conocer el impacto psicológico del acúfeno en el paciente. El test consiste en 25 preguntas con tres opciones de respuesta cada una: sí, a veces, no. De acuerdo con las respuestas sumaremos con cada ítem: 4 puntos al sí, 2 puntos al a veces y 0 puntos al no, de manera que el total varía entre 0 y 100 puntos.

El cuestionario puede dividirse en tres subescalas: la funcional (11 ítems) valora la repercusión del acúfeno en la vida cotidiana del paciente en el ámbito de la función física y mental; la emocional (9 ítems) abarca las cuestiones afectivas que provocan los acúfenos, por ejemplo, rabia, frustración, depresión etc.; por último, la escala catastrófica (5 ítems) que nos permite conocer la desesperación del paciente, la incapacidad de soportar el acúfeno y su propia percepción sobre la enfermedad.

[234]

En el año 1999 la Asociación Británica de Otorrinolaringología estandarizó una guía para clasificar la severidad del acúfeno según los resultados de THI. La incapacidad debida a los acúfenos se divide en 5 grados:

- Grado 1, muy leve (THI 0 a 16): el paciente refiere el acúfeno en ambientes silenciosos, sin apenas perturbación y con fácil enmascaramiento.
- Grado 2, leve (THI 18 a 36): el paciente no percibe el acúfeno en su vida diaria, siendo enmascarado por el ruido ambiental.
- Grado 3, moderado (THI 38 a 56): el acúfeno no dificulta las actividades diarias del paciente, pero sí dificulta la conciliación del sueño y no es enmascarado por el ruido ambiente.
- Grado 4, severo (THI 58 a 76): el paciente percibe el acúfeno de manera constante, interfiere con su vida diaria, impide el descanso y actividades diarias.
- Grado 5, catastrófico (THI 78 a 100): empeoran los síntomas del grado 4, en especial la incapacidad de conciliar el sueño. En algunos casos, el paciente puede presentar patologías psiquiátricas.

Tras la valoración objetiva del acúfeno, se solicita al paciente que nos refleje de manera subjetiva la molestia que le provoca el mismo; y lo hacemos mediante la VAS. Ésta consiste en una línea de 10 cm para representar la experiencia dolorosa desde "ausencia de dolor" hasta "peor dolor imaginable". El paciente debe marcar sobre la línea el punto que represente el dolor e incomodidad que le provoque el acúfeno. El examinador traduce la marca en un número marcado en el reverso. Se entiende valores entre 1-3 dolor leve, entre 4-7 dolor moderado y mayor de 7 dolor severo.

La evaluación del aspecto psicológico se realiza mediante la HADS. Esta escala, adaptada y validada en español, es utilizada en el ámbito ambulatorio. Está compuesta por 14 ítems, agrupando dos escalas. La subescala de ansiedad, con 7 ítems, se centra en el estudio de manifestaciones puramente psíquicas. La subescala de depresión, también con 7 ítems, se centra en aspectos más personales. El paciente responde las preguntas en base a la intensidad del síntoma o a la frecuencia de presentación del mismo, oscilando entre 0 (nunca, ninguna intensidad) a 3 (casi todo el día, muy intenso). La puntuación obtenida en cada subescala se interpreta según los criterios:

- De 0 a 7: rango de la normalidad.
- De 8 a 10: caso probable.
- De 11 a 21 caso de ansiedad o depresión.

Los ítems de esta escala incluyen aspectos cognitivos, emocionales y analizan comportamientos de la ansiedad y la depresión, sin tener en cuenta aspectos somáticos ligados con el proceso clínico que puedan generar resultados falsos positivos.

Análisis estadístico. Se ha llevado a cabo utilizando el programa informático SPSS versión 26.0. Para cada variable cuantitativa se ha calculado la media y desviación típica o media y rango. En el caso de las variables cualitativas se ha expresado la distribución de datos por frecuencias y porcentajes, analizando la dispersión de las mismas. En el caso de variables continuas, se estimó la normalidad mediante el test Kolmogorov-Smirnov.

Las pruebas cuantitativas se analizaron mediante el estudio del coeficiente de correlación de Pearson. Las diferencias entre variables fueron evaluadas mediante análisis ANOVA con correcciones post hoc Bonferroni. Se han considerado relaciones estadísticamente significativas a valores de la p inferiores a 0,05.

RESULTADOS

Nuestra muestra incluyó 15 pacientes con diagnóstico de EM definitiva. La edad media fue de 57,4±10,05 años, con edad media de diagnóstico de EM de 47,47±11,66 años. El 60 % de los pacientes fueron hombres.

[235]

La media de años de evolución de la EM al momento del estudio es de 9,93±10,01 años (rango: 1-35). Aparece de manera bilateral en el 13,3% de los pacientes y unilateralmente en 86,7%, siendo predominante en el oído derecho (46,7%).

La clínica aparece de manera sincrónica en el 40% de los casos, es decir, al diagnóstico presentaban hipoacusia, acúfenos y plenitud ótica. En el 60% restante, los síntomas fueron metacrónicos.

El estudio de hipoacusia determina que el 60% de los pacientes presenta un grado de pérdida de audición moderado, mientras la pérdida es leve en el 20% y severa en el 20% (Figura 1).

La media de la pérdida auditiva en todas las frecuencias del oído izquierdo tuvo un valor de 35,29±20,82 dB (Rango: 4-71) y en el oído derecho 39,79±19,12 dB (Rango: 10-72), (p>0,05).

La media de pérdida auditiva en cada frecuencia se sitúa en torno a los 50 dB (Figura 2).

En cuanto al acúfeno, la edad media de inicio fue de 49,40±11,66 años y una evolución media de

7,93±5,92 años. Los acúfenos fueron unilaterales en el 93,3% de los pacientes y bilaterales en el 6,7%.

En nuestra cohorte, 10 pacientes perciben el acúfeno en frecuencias graves (7 en 125 Hz y 3 en 500 Hz). De los 5 restantes, 1 percibe el acúfeno a 4000 Hz y en 4 a 8000 Hz.



Figura 1. Distribución de la muestra según grado de hipoacusia.

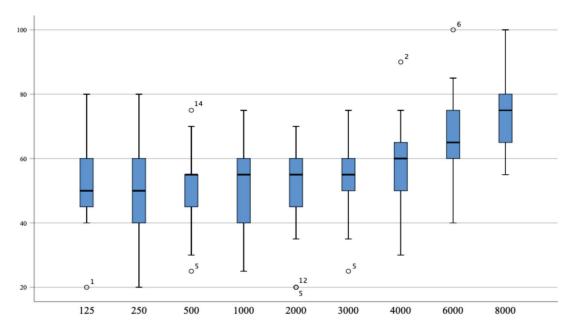


Figura 2. Pérdida de audición para cada frecuencia en el oído afectado por la enfermedad de Ménière.

Analizando los datos obtenidos en la acufenometría, la intensidad media del acúfeno es de 18,45±23,89 dB (Rango: -10 - 73 dB) y el umbral de enmascaramiento necesario para dejar de percibirlo de 5,45±10,44 dB (Rango: -22-19).

El THI determina una media de 35,07±24,29 puntos (Rango: 8-76). Siendo ésta una valoración subjetiva, no se correlacionó con los valores de PTA en el oído derecho (p=0,251) ni en el oído izquierdo (p=0,247).

La puntuación media de la escala VAS es de 5,93±1,58 puntos (Rango: 3-8).

Se determinó una correlación fuertemente significativa entre los valores obtenidos en THI y VAS para cada paciente (r=0,72; p<0,01). Sin embargo, no se encontró relación entre la puntuación de la VAS y el PTA del oído derecho (p=0,269) ni del oído izquierdo (p=0,375); al igual que lo sucedido con el THI.

En el HADS se obtuvo una puntuación media en la subescala de ansiedad de 5,40±2,746 puntos (Rango: 1-10) y en la de depresión de 3,87±3,72 puntos (Rango: 0-10). Hubo correlación significativa entre la subescala de depresión y la puntuación obtenida en THI (r=0,53; p=0,042), pero no entre ésta y la subescala de ansiedad (p >0,05).

Los pacientes se separaron en dos grupos según los años de evolución de la enfermedad de Ménière; encontrándose una correlación fuertemente significativa entre la puntuación de THI y la subescala de depresión en pacientes con una evolución de la enfermedad superior a 2 años (r= 0,821; p=0,001).

En el caso de clasificar los pacientes según los años de evolución de los acúfenos, encontramos una relación estadísticamente significativa entre aquellos con acúfenos de más de 2 años de evolución y una puntuación más elevada tanto en THI como en las dos subescalas del HADS: de depresión (r=0,72; p=0,008) y de ansiedad (r=0,596; p=0,041). Este hallazgo no se encuentra en pacientes con menos de 2 años de evolución de su acúfeno (Figura 3).

DISCUSIÓN

Las puntuaciones del THI se asocian estadísticamente con las obtenidas en la VAS; en cambio, dichas escalas no se relacionan con los valores de PTA de estos pacientes. Por tanto, no se objetivó una correlación clínica entre la pérdida auditiva y la intensidad subjetiva del acúfeno.

Debido a la implicación del acúfeno en el desarrollo de alteraciones del estado de ánimo, sería necesario aplicar en pacientes con EM una evaluación psicológica atendiendo de manera especial a su calidad de vida.

La bilateralidad en la Enfermedad de Ménière se recoge con grandes diferencias entre autores, en el caso de este estudio se encuentra un 13,3%, siendo lo habitual entre el 30 y el 40%.

Una fortaleza de nuestro estudio es la presencia de valores de PTA entre 35 dB del oído izquierdo y 39,5 dB del oído derecho, demostrando que ambos poseen un nivel semejante de daño auditivo. Al inicio de la enfermedad, la hipoacusia aparece sobre todo en las frecuencias graves, siendo de carácter fluctuante. Al progresar la misma, se van afectando las frecuencias agudas y el paciente presenta una curva de audiometría plana o pantonal [20, 21].

Lo habitual es que la evolución del acúfeno acompañe al curso de la enfermedad, es decir, la hipoacusia, acúfenos y plenitud ótica se manifiestan de manera conjunta [22, 23]; similar a otras publicaciones [17, 24], en el 40% de los pacientes del estudio la triada de síntomas se presentó de manera simultánea al inicio de la EM.

Los pacientes presentan acúfenos desde intensidades casi inapreciables hasta intensidades altas de 73 dB, lo que nos muestra el carácter tan heterogéneo del mismo [25].

La frecuencia a la cual se percibe el acúfeno se sitúa en la mayoría de los pacientes en tonos graves, de 125 a 500 Hz, que son las frecuencias más comúnmente afectadas [7, 17]. El acúfeno de tonalidad aguda se tolera peor por parte de los pacientes [26].

[237]

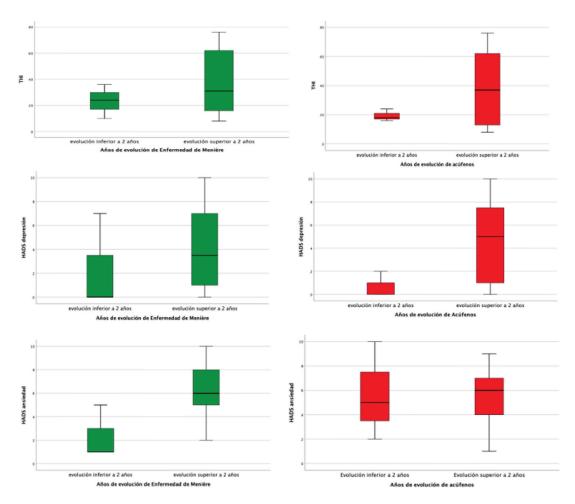


Figura 3. Representación de puntuaciones obtenidas en escala THI, HADS subescala depresión y subescala ansiedad segregando la muestra según los años de evolución de la Enfermedad de Ménière (izquierda) y años de evolución del acúfeno (derecha).

Los datos obtenidos en el estudio son congruentes con la pérdida de audición característica de la EM en frecuencias bajas. Además, los pacientes mayores a 60 años, la pérdida de audición se presentan también en frecuencias agudas, hecho característico del envejecimiento auditivo.

La adaptación española del THI y sus subescalas (funcional, emocional, catastrófica) muestra fiabilidad y consistencia interna elevada; de manera que puede ser utilizada para cuantificar el impacto del acúfeno en la vida diaria del paciente [25].

La puntuación del THI no se relacionó con el grado de pérdida auditiva. Pese a ello, algunos estudios destacan que una mayor afectación coclear puede intensificar la percepción del acúfeno y en casos de pérdida auditiva más marcada, el umbral

de enmascaramiento necesario para dejar de percibir el acúfeno es menor [26]. Sin embargo, otros estudios apuntan que los pacientes con audición normal pueden tener más molestias que los que tienen pérdida auditiva debido a la mayor intrusión del acufeno [19].

En pacientes con EM de larga duración, el acúfeno fue la principal razón de su malestar [27]. Esto se debe a que en fases avanzadas de la enfermedad se dejan de presentar crisis de vértigo y la pérdida de audición se estabiliza.

En nuestro estudio, existe una relación fuertemente significativa entre los valores obtenidos en la VAS y THI. Algunos autores concluyen de esta relación que cuanto más intensamente perciben los pacientes el acúfeno, más limita sus actividades y mayor impacto tiene en su calidad de vida [26].

Las puntuaciones obtenidas en ambas escalas subjetivas no se relacionaron con los valores de PTA del paciente en ninguno de los oídos, por tanto, la incomodidad debida al acúfeno no se puede atribuir a la pérdida auditiva. Contrario a nuestros resultados, Ratnayake et al. [28] sugieren que la subyacente pérdida de audición puede jugar un papel en las molestias por el acúfeno. No ha sido así en nuestro estudio, hecho atribuible quizás a contar con una muestra pequeña.

Varios son los estudios que han determinado la relación del acúfeno con problemas emocionales, principalmente ansiedad y depresión y con problemas cognitivos como dificultad en la concentración y atención [29, 30]. En cambio, el déficit auditivo no influía en estas actividades [31].

Los problemas emocionales se consideran consecuencia de la enfermedad [32] pero los factores psicológicos derivados podrían empeorar la percepción de los propios síntomas de la enfermedad [33, 34], dando lugar de esta manera a un círculo vicioso.

En nuestro estudio, se ha determinado la existencia de una relación significativa entre el grado de depresión y THI, pero no se encontró relación con el grado de ansiedad. Los pacientes con una mayor evolución en años, presentan peor resultado

en la escala HADS. La larga evolución de la EM se asocia a depresión, mientras que la ansiedad podría relacionarse con etapas precoces [35].

Numerosos estudios publicados apoyan estos resultados siendo la depresión el único factor con relación significativamente estadística con THI [15, 17, 19, 26], considerando la EM un trastorno vestibular periférico crónico con comorbilidades psiquiátricas [36].

Existe una elevada prevalencia de depresión a lo largo de la vida de los pacientes con acúfeno crónico, en torno al 60-80% [37, 38]:

La duración de la enfermedad no tiene relación significativa con puntuaciones en las subescalas de ansiedad y depresión [15]. Definitivamente, lo importante son los años de evolución del acúfeno.

El trastorno del ánimo comienza simultáneamente con la aparición del acufeno [39]. Se puede relacionar puntuaciones más elevadas en THI, VAS y HADS en pacientes con aparición del acúfeno de manera precoz [40].

La sintomatología depresiva asociada a la EM hace preciso un análisis multidisciplinar, haciendo hincapié en los factores psicosociales y si es necesario, someter a los pacientes a un examen diagnóstico de trastornos psiquiátricos [6, 42].

Por otro lado, el factor con más impacto en la percepción de la discapacidad en pacientes con EM es la presencia de una continua inestabilidad a pesar de no ser uno de los síntomas principales de la enfermedad. Por tanto, se recomienda utilizar clasificaciones que tengan en cuenta también los síntomas vestibulares [43].

El estudio de la discapacidad en la EM debe reflejar la situación psicológica del paciente, así como características familiares, laborales y sociales [6]. Estos datos apoyan la eficacia de la terapia cognitivo conductual en el tratamiento del acúfeno de estos pacientes [41].

La afectación de la EM presenta gran heterogeneidad clínica y eso conlleva grandes diferencias en la respuesta al tratamiento; el cual, no debe centrarse solamente en la patología, sino también

en los trastornos emocionales, siendo útil el manejo personalizado de la enfermedad para el control de los síntomas [44]. La identificación y tratamiento de la depresión podrían mejorar la calidad de vida general de los pacientes con la EM [36].

CONCLUSIONES

- El acúfeno es inherente a la enfermedad de Ménière pero presenta gran heterogeneidad entre pacientes, lo que dificulta tanto su diagnóstico como su abordaje terapéutico.
- La intensidad del acúfeno, cuantificada de manera subjetiva con THI, no se relaciona con el grado de pérdida auditiva en los pacientes con enfermedad de Ménière.
- Los valores de PTA de ambos oídos no se relacionaron con las puntuaciones de THI ni VAS, no pudiendo atribuir a la pérdida auditiva la incomodidad debida al acúfeno.
- En la mayoría de los casos, los pacientes perciben el acúfeno en tonos graves (125-500 Hz), siendo las frecuencias más afectadas en la enfermedad de Ménière.
- Los resultados obtenidos en las escalas VAS
 pueden extrapolarse a los de THI. Esto
 aporta validez al uso de la escala VAS en
 consulta, siendo de rápida aplicación y fácil
 comprensión por parte del paciente. Ambas escalas permiten evaluar el grado de intrusión del acúfeno en la vida del paciente.
- Los condicionantes emocionales presentan gran relevancia en los pacientes con enfermedad de Ménière. Los pacientes con intensas molestias por el acúfeno presentaron puntuaciones altas en THI, VAS y HADS asociando además una aparición temprana del mismo. Peores resultados en la escala HADS a expensas de la subescala de depresión se relacionaron con la presencia de acúfenos de más de dos años de evolución.

El tratamiento de la enfermedad de Ménière debe ser personalizado buscando predictores que detecten de manera precoz las molestias debidas al acúfeno para así reducir su impacto en la calidad de vida del paciente.

BIBLIOGRAFÍA

- 1. Herraiz C, Tapia MC, Plaza G. Tinnitus and Ménière's disease: Characteristics and prognosis in a tinnitus clinic sample. Eur Arch Oto-Rhino-Laryngology. 2006;263(6):504-509.
- Lopez-Escamez JA, Carey J, Chung WH, Goebel JA, Magnusson M, Mandalà M. Criterios diagnósticos de enfermedad de Ménière: Documento de consenso de la Bárány Society, la Japan Society for Equilibrium Research, la European Academy of Otology and Neurotology (EAONO), la American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery (AAO-HNS) y la Korean Balance Society. Acta Otorrinolaringol Esp. 2016;67(1):1–7.
- Basura GJ, Adams ME, Monfared A, Schwartz SR, Antonelli PJ, Burkard R. Clinical Practice Guideline: Ménière's Disease. Otolaryngol - Head Neck Surg (United States). 2020;162(2_suppl): S1–55.
- 4. La enfermedad de Ménière [Internet]. NIDCD. 2020 [consultado 26 Ag 2020]. Disponible en: https://www.nidcd.nih.gov/es/espanol/la-enfermedad-de-meniere
- Vazquez- Muñoz M, Gomez-Tapiador P, Oliva-Dominguez M. Síndromes Vestibulares Periféricos: Enfermedad De Meniere, Neuronitis Vestibular, Vértigo Posicional Paroxístico Benigno. Cirugía Del Vértigo. Acta Otorrinolaringol Esp. 2015; 1:21-29.
- 6. Pérez H, López J, Morales C, Fernández NP. Enfermedad de Ménière: desde las ciencias básicas hacia la medicina clínica. En: LX Congreso Nacional de la Sociedad Española de Otorrinolaringología y Patología Cervicofacial. Ediciones Médicas; 2009; 85–92
- Vernon J, Johnson R, Scheuning A. The characteristics and natural history of tinnitus in Meniere's disease. Otolaryngol Clin North Am. 1980; 13: 611-619.

- 8. Manuel Morales Puebla J, María Mingo Sánchez E, Miguel Menéndez Colino L. Exploración y Tratamiento del paciente con Acúfenos. En: Libro virtual de formación en ORL. Sociedad Española de Otorrinolaringología; 1996;1–30
- 9. Yoshida T, Stephens D, Kentala E, Levo H, Auramo Y, Poe D. Tinnitus complaint behaviour in long-standing Ménière's disorder: Its association with the other cardinal symptoms. Clin Otolaryngol. 2011;36(5):461–467.
- Perez-Carpena P, Martinez-Martinez M, Martínez Carranza RA, Batuecas-Caletrio A, Lopez- Escamez JA. A tinnitus symphony in 100 patients with Meniere's disease. Clin Otolaryngol. 2019;44(6):1176-1180.
- 11. Peña Martínez A. Evaluation of discapacity generated by tinnitus: national linguistichomologation of Tinnitus Handicap Inventory (THI) Handicap Evaluation in Tinnitus Patients: a national linguistic adaptation. Rev Otorrinolaringol y cirugía cabeza y cuello. 2006;66(3):232–235.
- 12. Crummer RW, Hassan GA. Diagnostic Approach to Tinnitus - American Family Physician. Am Acad Fam Physicians. 2004; 69:120-126.
- Zhang Y, Liu B, Wang R, Jia R, Gu X. Characteristics of the cochlear symptoms and functions in Meniere's disease. Chin Med J (Engl). 2016;129(20):2445-2450.
- Yardley, L., Dibb, B. and Osborne, G. (2003), Factors associated with quality of life in Ménière's disease. Clin Otolaryngolog. 2003; 28: 436-441
- 15. Stephens D, Pyykkö I, Yoshida T, Kentala E, Levo H, Auramo Y. The consequences of tinnitus in long-standing Ménière's disease. Auris Nasus Larynx. 2012;39(5):469–474.
- Rosini DCE, Marconi MLCPL. Ménière 's disease and anxiety disorders. Acta Otorhinolaryngol Ital. 2003; 23: 421- 427.
- 17. Havia M, Kentala E, Pyykkö I. Hearing loss and tinnitus in Meniere's disease. Auris Nasus Larynx. 2002; 29(2):115–119.
- 18. Arroll M, Dancey CP, Attree EA, Smith S, James T. People with symptoms of Ménière's disease: The relationship between illness intrusiveness, illness uncertainty, dizziness handicap, and depression. Otol Neurotol. 2012;33(5):816–823.

- Pajor AM, Ormezowska EA, Jozefowicz-Korczynska M. The impact of co-morbid factors on the psychological outcome of tinnitus patients. Eur Arch OtoRhinoLaryngology. 2013; 270(3): 881–888
- Lee CS, Paparella MM, Margolis RH, Le C. Audiological profiles and Meniere's disease. Ear Nose Throat J 1995; 74(8): 527-532.
- Mancini F, Catalani M, Carru M, Monti B. History of Meniere's disease and its clinical presentation. Otolaryngol Clin North Am 2002; 35(3):565-580.
- 22. Sajjadi H, Paparella MM. Meniere's disease. Lancet. 2008;372(9636):406-14.
- Filipo R, Barbara M. The natural course of Meniere's disease. Proc 3rd International Symposium on Meniere's disease. Amsterdam: Kugler; 1994: 9-20
- Stahle J, Friberg U, Svedberg A. Long-term progression of Meniere's disease. Acta Otolaryngol Suppl 1991; 485:78-83.
- 25. Herraiz C, Hernandez Calvin J, Plaza G, Tapia MC, De los santos G. Evolución de la incapacidad en pacientes con acúfenos. Acta Otorrinolaringológica Española. Elsevier. 2001; 52(6): 534-538
- 26. Romero Sánchez I, Pérez Garrigues H, Rodríguez Rivera V. Clinical characteristics of tinnitus in Ménière's disease. Acta Otorrinolaringol (English Ed) 2010;61(5):327–31.
- 27. Hägnebo C., Melin L., Larsen H. et al. The influence of vertigo, hearing impairment and tinnitus on the daily life of Meniere's patients. Scand. Audiol. 1997; 26, 69–76
- 28. Ratnayake SA, Jayarajan V, Bartlett J. Could an underlying hearing loss be a significant factor in the handicap caused by tinnitus? Noise Health 2009; 11:156–160
- Halford JBS, Anderson SD. Anxiety and depression in tinnitus sufferers. J Psychosom Res 1991; 35:383–390
- Stephens SDG, Hallam RS. The Crown-Crisp Experiential Index in patients complaining of tinnitus. Br J Audiol 1985; 19:151–158
- Stevens C, Walker G, Boyer M, Gallagher M. Severe tinnitus and its effect on selective and divided attention. Int J Audiol. 2007; 46:208–216

- 32. House JW, Crary WG, Wexler M. The interrelationship of vertigo and stress. Otolaryngol Clin North Am. 1980; 4:625-629.
- 33. Groen JJ. Psychosomatic Aspects of Ménière's Disease. Acta Otolaryngol. 1983; 95:407-16.
- 34. Hinchcliffe R. Emotion as Precipitating Factor in Ménière's Disease. J Laryngol Otol. 1967; 81:477-81.
- 35. Pollak L, Klein C, Rafael S, Vera K, Rabey JM. Anxiety in the First Attack of Vertigo. Otolaryngology-Head Neck Surgery 2003; 128:829-34.
- 36. Patel JJ, Levy DA, Nguyen SA, Rizk HG, Meyer TA. Depression in Ménière's disease: a systematic review and meta-analysis. The Journal of Laryngology & Otology. Cambridge University Press. 2020;134(4):293-301.
- 37. Sullivan MD, Katon W, Dobie R, Sakai C, Russo J, Harrop-Griffiths J. Disabling tinnitus. Association with affective disorder. Gen Hosp Psychiatry. 1988; 10(4):285-291.
- 38. Ziai K. Tinnitus Patients Suffering from Anxiety and Depression: A Review. 2017;21(1):68-73.

- 39. Andersson G, Baguley DM, McKenna L, McFerran D. Tinnitus. A multidisciplinary approach. Second Edition. London: Whurr; 2005.
- 40. Maas IL, Brüggemann P, Requena T, Bulla J, Edvall NK, Hjelmborg JVB, Genetic susceptibility to bilateral tinnitus in a Swedish twin cohort. Genet Med 2017;19(9):1007-1012.
- 41. Eckhardt-henn A, Best C. Psychiatric comorbidity in different organic vertigo syndromes. J Neurol. 2008;420-428.
- 42. Soto-Varela A, Gayoso-diz BHP. Disability perception in Ménière's disease: when, how much and why? Eur Arch OtoRhinoLaryngology. 2016;273(4):865-72.
- 43. Bhatt JM, Bhattacharyya N, Lin HW. Relationships between tinnitus and the prevalence of anxiety and depression. Laryngoscope 2007; 7;127(2):466-469.
- 44. Wu P, Wang H, Wu Z. The assessment of anxiety and depression state in Meniere's disease patients. Lin Chung Er Bi Yan Hou Tou Jing Wai Ke Za Zhi. 2012; 26: 516-8.

[242]

ARTÍCULO ORIGINAL

PÉRDIDA DE AUDICIÓN TRAS GENTAMICINA INTRATIMPÁNICA EN LA ENFERMEDAD DE MÉNIÈRE. ESTUDIO RETROSPECTIVO

Hearing loss after intratympanic gentamicin in Ménière's disease. Retrospective study

Cristina VILLAOSLADA-FUENTES; María José FERNÁNDEZ-NAVA; Sofía FERREIRA-CENDÓN; Rosana VILLAOSLADA-FUENTES; Hortensia SÁNCHEZ-GÓMEZ; Ángel BATUECAS-CALETRÍO

Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello del Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Correspondencia: mjfernandeznava@hotmail.com

Fecha de recepción: 16 de marzo de 2021 Fecha de aceptación: 1 de mayo de 2021 Fecha de publicación: 3 de mayo de 2021

Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses. Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO) Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

RESUMEN: Introducción y objetivo: La enfermedad de Ménière (EM) se caracteriza por crisis de vértigo recurrentes acompañadas de acúfenos, pérdida de audición y sensación de plenitud ótica. Dentro de las opciones terapéuticas se hablará, entre otras, de inyección de gentamicina intratimpánica (ITG). El objetivo es evaluar la pérdida de audición tras la ITG en pacientes con EM. Método: Se estudiaron 33 pacientes con EM definitiva a los cuales se les administró ITG. Se valoró la pérdida de audición al mes de la ITG, a los 6, 12 y 24 meses. Resultados: De los 33 pacientes analizados, el 78,8% presentaban EM unilateral; el 21,2%, bilateral. El 48,5% fueron mujeres; el 51,5%, hombres. El 39,4% ya habían sido tratados con betahistina y corticoides. 9 pacientes presentaron crisis de Tumarkin antes de la ITG. Se comparó el PTA (Pure Tone Average) previo a la administración de ITG con el obtenido a los 2 años y la audición disminuyó de 57,50 dB a 62,58 dB. 9 pacientes precisaron una segunda tanda de ITG, con una pérdida de audición desde 66,72 dB a 68,96 dB. Y tras esto, 3 pacientes necesitaron una tercera tanda, pasando la audición de 63,75dB a 72,50 dB. Conclusiones: La utilización de ITG en la EM y provoca una caída del PTA de alrededor de 5 dB a expensas de una mejoría en la frecuencia e intensidad de las crisis de vértigo.

PALABRAS CLAVE: Enfermedad de Ménière; gentamicina; audiometría.

[243]

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

SUMMARY: Introduction and objective: Ménière's disease (MS) is characterized by recurrent vertigo attacks with tinnitus, hearing loss and aural fullness. Among the therapeutic options, intratympanic injection of gentamicin (ITG) will be discussed, among others. The objective is to evaluate hearing loss after ITG in patients with MS. Method: 33 patients of the Otorhinolaryngology and Head and Neck Surgery Service of the Hospital Clínico Universitario de Salamanca will be studied, all of them with definitive MS to whom ITG was administered. Hearing loss will be assessed one month after the ITG, at 6, 12 and 24 months. Results: Of the 33 patients analyzed, 78.8% had unilateral MS; 21.2%, bilateral. 48.5% were women; 51.5%, men. 39.4% had already been treated with betahistine and corticosteroids. 9 patients presented Tumarkin crisis before ITG. The PTA (Pure Tone Average) prior to ITG administration was compared with that obtained at 2 years and hearing decreased from 57.50 dB to 62.58 dB. 9 patients required a second round of ITG, with a hearing loss ranging from 66.72 dB to 68.96 dB. And after this, 3 patients needed a third wave, hearing from 63.75dB to 72.50 dB. Conclusions: The use of ITG in MS causes a fall in PTA of around 5 dB at the expense of an improvement in the frequency and intensity of vertigo attacks.

KEYWORDS: Meniere Disease; gentamicin; audiometry.

INTRODUCCIÓN

Para diagnosticar la Enfermedad de Ménière (EM) es fundamental tener en cuenta los siguientes criterios: dos o más crisis de vértigo de mínimo 20 minutos, acúfenos unilaterales, hipoacusia neurosensorial unilateral fluctuante (en frecuencias < 2000Hz) documentada mediante audiometría en al menos una ocasión y sensación de plenitud ótica, excluyendo otras causas [1, 2]. Estos síntomas son intermitentes y variables en intensidad y duración [3]. Esta enfermedad se suele diagnosticar en torno a los 40-60 años y la incidencia es similar en ambos sexos [4].

Presenta una etiología multifactorial [5]. Se acepta que está causada por un desequilibrio entre la generación de endolinfa por la estría vascular del conducto coclear y la reabsorción de esta por el saco endolinfático [4]. A pesar de ello, esto no explica completamente las características clínicas de la enfermedad ni su evolución [6].

En el consenso que se elaboró en 2015 sobre los criterios diagnósticos de la EM, se valoran dos categorías: definitiva y probable [7].

Algunos pacientes sufren caídas sin pródromos y sin pérdida de conocimiento que duran varios segundos y que se conocen como crisis otolíticas de Tumarkin [8].

La terapia usada en la EM está enfocada en reducir la frecuencia y gravedad de las crisis de vértigo, con el menor deterioro posible de la audición [9]. Según el Consenso Internacional sobre el tratamiento, presentado en París [10], se contemplan varios escalones terapéuticos desde medidas generales hasta llegar a distintas opciones conservadoras o ablativas [10].

La primera línea de tratamiento sería médica conservadora con diuréticos, betahistina (fármaco que puede actuar mejorando el flujo sanguíneo hacia el oído interno [11]) y corticoides orales [12]. Si no se consigue el control de la enfermedad, se utilizarían corticoides intratimpánicos (ITC) [10]. Un tercer paso incluiría la cirugía del saco endolinfático (ELSS) si la audición está conservada [10].

Si el tratamiento conservador falla, se consideraría el tratamiento ablativo, dentro de ellos: la ITG, la laberintectomía y neurectomía vestibular (VN). Los tratamientos ablativos son usados preferentemente en pacientes con pérdida auditiva [10]. Está defendido un protocolo con inyecciones de ITG a 40mg/ml hasta la desaparición de los síntomas. La gentamicina actúa en el oído interno porque accede a él a través de las ventanas redonda y oval en su inyección [13] y produce pérdida de audición por la activación de mecanismos apoptóticos por radicales libres de oxígeno [14, 15]. La ototoxicidad

[244]

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

aparece días o semanas después del tratamiento y es generalmente irreversible, inicialmente se afectan altas frecuencias. El riesgo de pérdida auditiva aumenta con el incremento de la dosis, la frecuencia de administración y la duración del tratamiento [16]. Si todo lo anterior fallase, se podría considerar la realización de técnicas como la laberintectomía quirúrgica o la VN [10].

El objetivo del estudio está en evaluar las repercusiones audiométricas a largo plazo del tratamiento con ITG.

MATERIAL Y MÉTODO

Población. Se ha realizado un estudio retrospectivo de una cohorte de 33 pacientes iniciales (29, con la pérdida de 4 de ellos para el estudio) diagnosticados de EM definitiva unilateral o bilateral, en el Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello del Complejo Asistencial Universitario de Salamanca. Los criterios diagnósticos de la EM definitiva son: dos o más episodios de vértigo espontáneo de entre 20 minutos y 12 horas de duración, hipoacusia neurosensorial de frecuencias medias y bajas documentada con audiometría en al menos un oído, definiendo el oído afectado en al menos una ocasión antes, durante o después de uno de los episodios de vértigo; síntomas auditivos fluctuantes en el oído afecto y exclusión de otro diagnóstico vestibular que explique los síntomas [5]. A todos los pacientes de nuestra cohorte se le ha administrado como mínimo una tanda de ITG, entendiendo por tanda al periodo dentro del cual se aplicaron un número variable de invecciones de ITG separadas menos de un año cada una de ellas. En el caso de que este tiempo fuese superior, se habla de una nueva tanda de ITG. En la cohorte de este trabajo, la edad media de los 33 pacientes que se incluyeron en la muestra fue de 64,94 años (DE=12,44; mínimo=40 años, máximo=86 años, rango=46 años). La muestra siguió una distribución semejante en cuanto al sexo: 16 mujeres y 17 hombres. De los 33 enfermos, la mayoría cursaban con una EM definitiva unilateral (n=26) y tan solo 7 de ellos fueron diagnosticados de una EM definitiva bilateral. Además, 9 de los pacientes del estudio (27,3%) sufrieron crisis de Tumarkin.

Metodología de estudio. La dosis de ITG administrada ha sido de 0,4-0,5 mL (concentración de 20mg/ml). El número de inyecciones fue variable, dependiendo de la respuesta de cada enfermo, siempre separadas un mes entre sí. Se aplicó ITG a todos los pacientes que habiendo recibido previamente todos los tratamientos previos posibles no controlaron la sintomatología de la enfermedad y también a todos aquellos que sin ser necesario este requisito, sufrieron crisis de Tumarkin.

Variables. Se llevó a cabo un seguimiento de la evolución audiométrica mediante la comparativa de PTA (media de 500, 1000, 2000 y 4000Hz) de sus audiometrías tonales. El seguimiento audiométrico se realizó al mes, a los 6, 12 y 24 meses post-ITG, pero en este estudio se trabajará con los resultados a los 24 meses para realizar las comparaciones de acuerdo con el diseño del estudio. Además, se consideraron diferentes variables al realizar el análisis estadístico: edad, sexo, EM unilateral o bilateral, tratamientos previos, número de inyecciones de gentamicina y número de tandas de inyecciones de gentamicina.

Análisis estadístico. Se realizaron los siguientes estudios estadísticos mediante el programa informático SPSS (versión 25.0, IBM Company Inc, Chicago, Illinois). Se realizó una prueba de Kolmogorov-Smirnov (n>30) que se aplicó a las variables cuantitativas y todas ellas seguían una distribución normal, siendo susceptibles de pruebas paramétricas. Las variables cuantitativas se describieron con la media y la desviación estándar (DE) y se analizaron mediante una prueba de T de Student. Las variables cualitativas se analizaron mediante la prueba de Chi-cuadrado. Se estableció un nivel de significación de p<0,05. Y se fijó en 10dB el límite a partir del cual se objetivan diferencias significativas de pérdida de audición [2].

[245]

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

Ética. En la elaboración de este trabajo se han seguido los "Principios Éticos para las investigaciones médicas en seres humanos" publicados por la Asociación Médica Mundial y recogidos en la Declaración de Helsinki de 2013 [17].

RESULTADOS

La ITG es un tratamiento médico ablativo que en esta muestra se plantea en aquellos pacientes donde las crisis de vértigo de la EM no son controladas con los tratamientos médicos conservadores. La dosis de la betahistina pautada en los pacientes es de 24mg cada 8 horas vía oral. El corticoide oral utilizado fue la prednisona, cuya dosis se ajustó al peso de cada paciente, estipulando un tratamiento a altas dosis durante 7 días, con posterior pauta descendente. La ITC se realizó con dexametasona, administrando entre 0.4-0.5mL. De los 33 pacientes, 13 de ellos fueron tratados previamente con betahistina, corticoide oral y corticoide intratimpánico. Un paciente no recibió tratamientos previos. El paciente que no recibió tratamientos previos sufría crisis de Tumarkin. En este recuento, tres pacientes se perdieron por falta de información. (Tabla 1).

El valor medio del PTA calculado en nuestra cohorte antes del tratamiento es de 57,50dB (DE=16,05, mínimo=16,25dB, máximo=83,75dB; rango=67,50). Calculamos el PTA previo y la mayoría de nuestros pacientes (n=29 pacientes, 87,88%) partían de un PTA previo al tratamiento ≥ 40dB, teniendo los 4 restantes un PTA <40dB antes de la ITG.

15 de estos pacientes (45,5%) solo recibieron una dosis de ITG en esta tanda. El número máximo de inyecciones de gentamicina administradas a un paciente en esta tanda fue de 7.

Calculando los PTA medios de la muestra de este trabajo a distintos puntos del seguimiento y comparándolos con el previo al tratamiento con gentamicina, objetivamos una caída del PTA de 57,50 dB a 62,58 dB a los 2 años, es decir, de 5,08

dB (Figura 1). 4 pacientes se perdieron por falta de datos, por lo que la PTA media calculada a los 2 años se calculó sobre 29 pacientes.

No se halló relación estadísticamente significativa (p>0,05) entre la cifra audiométrica antes del tratamiento y la diferencia de dicha cifra con el PTA a los 2 años de la ITG (prueba ChiCuadrado), fijándose como límite 10dB [3].

La mayoría de los pacientes tenían un PTA ≥40 dB antes de la primera tanda con ITG. Al comparar la evolución del PTA a los dos años, no se encuentran diferencias estadísticamente significativas (p>0,05) entre los pacientes con un PTA <40dB o ≥40dB antes del tratamiento (prueba: T de Student para muestras independientes), fijándose como límite 10dB de diferencia [3].

De los 29 pacientes, el 27,3% necesitaron una segunda tanda de inyecciones. De esos 9 pacientes, el 44,4% recibió una dosis de ITG y 1 paciente necesitó 7.

Si se calcula el PTA medio antes de la segunda tanda de la ITG de estos 9 pacientes de la muestra, se objetiva un valor mayor (66,72dB) que el adjudicado al total de pacientes que solo necesitó una tanda (PTA previo=57,50dB; PTA tras 2 años de seguimiento=62,58dB). De los 9 pacientes, acabaron el seguimiento 6 de ellos, obteniéndose un PTA a los dos años de 68,96dB (Figura 2). En el caso concreto del paciente que requirió hasta 7 inyecciones de gentamicina en la segunda tanda para el control de su EM, el PTA medio cayó de 62,50dB a 78,75dB a los 24 meses.

El 50% de los pacientes que fueron tratados con dos tandas de ITG necesitaron una tercera tanda. En estos pacientes su PTA pasó de 63,75 a 72,50dB (Figura 3).

Variación de PTA en pacientes sometidos a una 2ª tanda de ITG (cohorte 1) frente a pacientes que recibieron una sola tanda (cohorte control).

Comparación de la variación de PTA entre pacientes que necesitaron un segundo ciclo de ITG, frente a aquellos que no precisaron más ciclos y cuya pérdida de audición se asimila a la

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

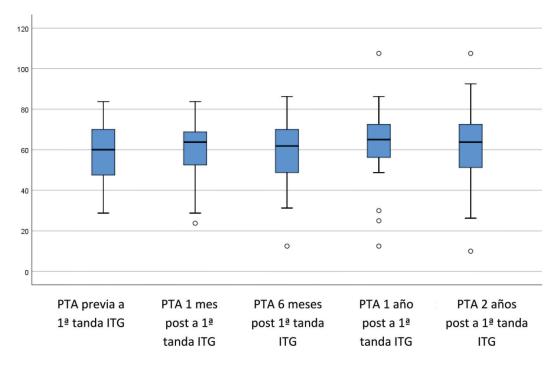


Figura 1. Evolución de PTA en la 1ª tanda de gentamicina intratimpánica.

correspondiente al resultado de la evolución natural de la enfermedad. Se mide la media de PTA en cada grupo tras un periodo de dos años tras finalizar la tanda de ITG y los resultados fueron:

- 20 pacientes no precisaron un segundo ciclo de ITG. La PTA media a los 2 años fue de 62,81dB.
- 9 pacientes precisaron un segundo ciclo de ITG. La PTA media a los dos años fue de 68,96dB.

La diferencia entre los pacientes en los que se puso una sola tanda de gentamicina frente a aquellos que recibieron una segunda es de 6,15dB, presentando una PTA mayor aquellos pacientes en los que se aplicó un segundo ciclo de ITG, pero este resultado no es estadísticamente significativo (p>0,05).

Variación de PTA en pacientes sometidos a una 3ª tanda de ITG (cohorte 2) frente a pacientes que recibieron una sola tanda (cohorte control)

Comparación de la variación de PTA entre la cohorte 2 y cohorte control. Se mide la media de PTA en cada grupo tras un periodo de dos años tras finalizar la tanda de ITG y los resultados fueron los siguientes:

- 20 pacientes no precisaron un segundo ciclo de ITG. La PTA media a los 2 años fue de 62,81dB.
- 3 pacientes precisaron un tercer ciclo de ITG, resultando válidos dos de los mismos. La PTA media a los dos años fue de 72,50dB.

La diferencia entre los pacientes en los que se puso una sola tanda de gentamicina frente a aquellos que recibieron un tercer ciclo es de 9,69dB,

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

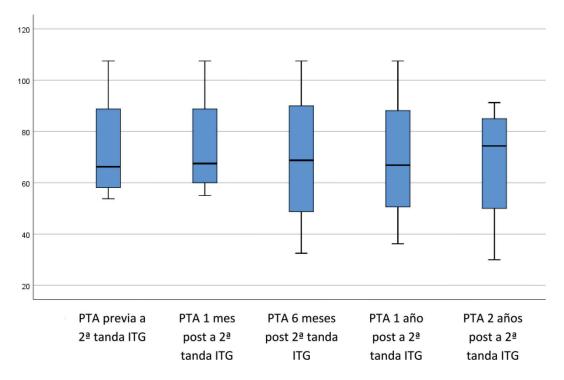


Figura 2. Evolución de PTA antes y después de la 2ª tanda de gentamicina intratimpánica.

presentando una PTA mayor aquellos pacientes que recibieron una tercera tanda de ITG. Este resultado no es estadísticamente significativo (p>0,05).

DISCUSIÓN

En esta muestra contamos con 33 pacientes con EM que recibieron tratamiento con ITG. El 48,5% son mujeres y el 51,5%, hombres, es decir, la proporción de hombres y mujeres era similar, esto se corresponde con la afirmación de que el cuadro clínico suele afectar por igual a ambos sexos [2]. La edad media de este estudio es de 64,94 años (DE=12,44; mínimo=40 años, máximo=86 años, rango=46 años); sin embargo, la edad media del diagnóstico de la enfermedad es en torno a los 40-60 años [1, 18]. Esta diferencia se puede explicar

por la selección que se ha hecho, siendo la mayoría de ellos pacientes con EM de muchos años de evolución, que son aquellos que suelen requerir tratamiento con gentamicina.

Se encuentran con más frecuencia pacientes con EM unilateral (78,79%), que pacientes con EM bilateral (21,21%). Havia [19] en su estudio describe una afectación bilateral en un 16% de los pacientes al diagnóstico, aumentando este porcentaje hasta un 44% en pacientes con más de 20 años de evolución de la enfermedad [20]. En este estudio el porcentaje de bilateralidad es mayor por la larga evolución de la enfermedad en estos pacientes.

Las crisis de Tumarkin se presentan en un 5%-6% de los pacientes que tienen diagnosticada la EM a lo largo de su evolución [20]. 9 de nuestros pacientes presentan crisis de Tumarkin, lo que

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

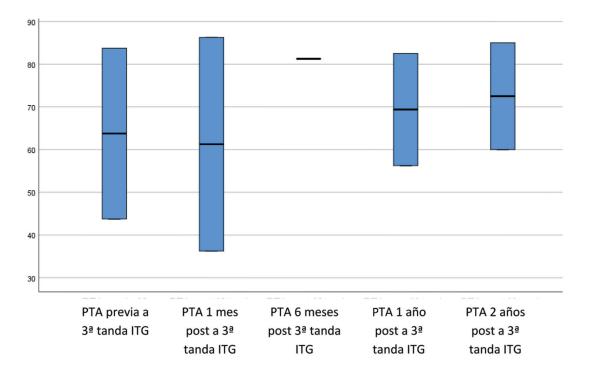


Figura 3. Evolución del PTA antes y después de la 3ª tanda de gentamicina intratimpánica

representa un 27,27% del total, pero hay que tener en cuenta que los pacientes de este estudio han sido sometidos a una rigurosa selección previamente por haber sido tratados todos ellos con ITG. La ITG se considera de primera línea en un paciente con crisis de Tumarkin [20]. Debido a esto, y a que las mismas aparecen en pacientes con más años de progreso de la EM, el porcentaje de crisis de Tumarkin de nuestra muestra es superior.

El 39,4% de los enfermos recibieron todos los tratamientos previos posibles antes de la gentamicina, (betahistina, corticoides orales y corticoides intratimpánicos). No siempre fue así. Un paciente no recibió ningún tratamiento previo, esto se debe a que el mismo sufría crisis de Tumarkin y se trató directamente con ITG [20]. El 24,2% solo recibió betahistina previa, el 6,1% solo ITC y el 6,1%, ambas. En estos casos se suprimió el uso de corticoides orales posiblemente debido a contraindicaciones para su uso [21]. En los casos en que se usó solo betahistina o solo ITC se puede deber a que presentaron una gran pérdida auditiva o a que tuvieron crisis de Tumarkin.

Según Kaplan et al. [22], un PTA previo al tratamiento con gentamicina >40dB es el único factor de riesgo identificable para desarrollar hipoacusia tras la ITG. El 87,9% de los pacientes de nuestra cohorte superan esos 40dB. No hay relación estadísticamente significativa (p=0,928) entre la cifra audiométrica de PTA antes del tratamiento con la gentamicina (ya fuera mayor, menor o igual a 40dB), y la diferencia de dicha cifra con el PTA a los 2 años de tratamiento, fijándose como límite 10dB [3]. El tratamiento con ITG en pacientes con una PTA previa <40dB está justificado en pacientes con EM no resuelta con el manejo médico conservador y en quienes el vértigo es el síntoma más importante [12].

[249]

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

En el primer ciclo de tratamiento, 15 pacientes consiguieron controlar las crisis con 1 dosis de gentamicina, pero otros necesitaron hasta 7 dosis del fármaco. Hay varios factores que podrían explicar estas diferencias, la difusión de la medicación a la perilinfa depende de la permeabilidad y grosor de la membrana de la ventana redonda y de la dosis y concentración del fármaco en ese espacio [23]. También hay que considerar la farmacocinética de la sustancia, el método de aplicación, la sensibilidad individual al fármaco y la farmacodinamia del oído interno [23].

En la primera tanda de tratamiento se evalúa la PTA previa a la ITG, al mes post-ITG, a los seis meses y a los dos años. Se objetiva así una caída del PTA de 57,50dB (previa a la ITG) a 62,58dB (a los dos años), es decir, de 5,08dB. Pero no hay relación estadísticamente significativa (p>0,05). No hay consenso sobre la dosis y la duración del tratamiento intratimpánico con gentamicina [24]. En nuestro estudio, la ITG se ha administrado a demanda. Hay 15 enfermos con 1 inyección, 8 con 2, 5 con 3, 4 con 3, 1 con 5 y un último paciente con > 5 inyecciones, en concreto 7. En este último paciente, se objetivó una caída del PTA previo al tratamiento con respecto al PTA a los 2 años post-ITG de 8,75dB, situándose por encima de los 5,08dB.

Un 31,03% de los pacientes precisaron un segundo ciclo de tratamiento con ITG. Gallardo Flores et al. [25] usaron dosis más bajas de gentamicina con el objetivo de conseguir alteración química sin esperar la aparición de signos de desaferentación. Obtuvieron un control total del vértigo en un 82% y significativo en 12%. Tras dos años de seguimiento, el control total del vértigo fue de 74%, y fue significativo en 11%, y a los cuatro años fue de 52 y 24%, respectivamente [25]. Pasados los años pueden volver a aparecer crisis, ya que las dosis que se usan no son ablativas totalmente y no se destruye por completo el sistema vestibular, con esto podemos explicar que parte de los enfermos precisaran una segunda tanda de ITG.

La PTA media de esta muestra tras el segundo ciclo de tratamiento con ITG se sitúa en 68,96dB,

y por lo tanto se observa que ha habido pérdida de audición respecto a los 57,50dB de media de estos pacientes en el momento previo al tratamiento con ITG. Pero este resultado, ¿es debido a la ototoxicidad de la gentamicina o a la evolución natural de la EM? Para ello se comparó la PTA media a los 2 años de la primera tanda de ITG entre los pacientes que no recibieron más dosis de gentamicina (62,81dB) frente aquellos en los que se aplicó una segunda tanda (68,96dB) encontrando entre ambos una diferencia de 6,15dB, la cual no se considera estadísticamente significativa siendo esta <10dB que es el valor fijado por la AAO-HNS para considerarlo de interés [3]. Se concluye que la gentamicina no aumenta la pérdida auditiva.

Limitaciones del estudio. Podría contar este estudio con un sesgo ya que no se ha tenido en cuenta la dosis total administrada porque el número de inyecciones de ITG ha sido variable en las diferentes tandas. También se puede ver limitado el estudio por el reducido tamaño muestral y por la exposición a ITG, en este caso, el factor de estudio en la cohorte control.

CONCLUSIONES

El riesgo de disminución de la audición es un efecto secundario conocido de la ITG.

En esta cohorte, el tratamiento de la EM con una tanda de ITG provoca una caída del PTA en torno a 5dB a expensas de una mejora en la intensidad y frecuencia de las crisis de vértigo, con lo cual la ITG no supone un deterioro significativo de la audición.

La pérdida de audición aumenta en sucesivas tandas de ITG, hecho indistinguible de la disminución auditiva que de por sí ocurre en la evolución natural de la EM.

BIBLIOGRAFÍA

Acosta Egea S, Echeverría Miranda M, Salas Salas
 E. Enfermedad de Ménière en adultos. Revista
 Ciencia Y Salud. 2020;4(4):96-105. Disponible

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

- en: http://revistacienciaysalud.ac.cr/ojs/index. php/cienciaysalud/article/view/187/247 [Citado el 28 marzo 2021].
- 2. Wu IC, Minor LB. Long-term hearing outcome in patients receiving intratympanic gentamicin for Ménière's disease. Laryngoscope. 2003;113: 815 - 20.
- 3. Sam G, Wong Chung D, Van Der Hoeven R, Verweij S, Becker M. The effect of intratympanic gentamicin for treatment of Ménière's disease on lower frequency hearing. Int J Clin Pharm. 2016;38(4):780-83.
- 4. Peñarrocha Terés J, Frágola Arnau C, Llavero Segovia MT, Rosell Cervilla A, Álvarez de Cózar F. Vértigo Periférico. En: Baragaño Río L. Manual del residente de ORL y patología cérvico-facial. XXIV. Madrid:IM&C;2002.841-42.
- 5. Lopez Escamez JA, Perez Carpena P. Current Understanding and Clinical Management of Meniere's Disease: A Systematic Review. Semin Neurol. 2020;40(01):138-50. DOI: 10.1055/s-0039-340206.
- 6. Merchant SN, Adams JC, Nadol JB Jr. Pathophysiology of Ménière's Syndrome: Are Symptoms Caused by Endolymphatic Hydrops?. Otol. Neurotol. 2005;206(01):74-81.
- 7. López Escámez JA, Carey J, Chung WH, Goebel JA, Magnusson M, Mandalà M et al. Criterios diagnósticos de enfermedad de Ménière. Documento de consenso de la Bárány Society, la Japan Society for Equilibrium Research, la European Academy of Otology and Neurotology (EAONO). Acta Otorrinolaringol Esp. 2016;67(1):1-7.
- 8. Morales Angulo C, Gallo Terán J. Crisis otolíticas de Tumarkin o drop attacks en pacientes con enfermedad de Meniere. Acta Otorrinolaringol Esp. 2005;56:469-71.
- 9. Bronstein A, Lempert T. Dizzines. A practical Approach to Diagnosis and Management. Chapter 4: Recurrent vértigo and dizziness. 79-83. 2ª edición. Cambridge. 2017.
- 10. Nevoux J, Barbara M, Dornhoffer J, Gibson W, Kitahara T, Darrouzet V. International consensus (ICON) on treatment of Ménière's disease. Eur. Ann. Otorhinolaryngol. Head Neck Dis. 2018;135(1):S29-S32.

- 11. Murdin L, Hussain K, Schilder A. Betahistine for symptoms of vertigo. Cochrane Database of Systematic Reviews. 2016; 6. DOI: 10.1002/14651858. CD010696.pub2.
- 12. Victoria Bianchi M. Tratamiento de la Enfermedad de Ménière. Revista FASO año 22. Suplemento vestibular 1ª parte. 2015;71. Disponible en: http://faso.org.ar/revistas/2015/suplemento_ vestibular/13.pdf [Citado el 9 feb 2021].
- 13. Schoo DP, Tan G, Ehrenburg MR, Pross SE, Ward BK, Carey JP. Intratympanic (IT) Therapies por Ménière's Disease: Some Consensus Among the Confusion. Curr Otorhinolaryngol Rep. 2017;5(2):132-41.
- 14. Yetiçer S. Intratympanic Gentamicin for Intractable Ménière's Disease - A Review and Analysis of Audiovestibular Impact. Int Arch Otorhinolaryngol. 2018;22:190-94.
- 15. Pérez Fernández N, García Purriños F. Enfermedad de Meniere: Ponencia Parte 4.2: Tratamiento de la EM. Tratamiento intratimpánico. 2009;
- 16. Edizer DT, Yigit O, Cinar Z, Gul M, Kara E, Yigitcan B, Hayir D, Atas A. Protective role of intratympanic nigella sativa oil against gentamicin induced hearing loss. International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology. 2017;97:83-8.
- 17. Mastroleo I. Consideraciones sobre las obligaciones posinvestigación en la Declaración de Helsinki 2013. Rev. Bioética y Derecho [Internet]. 2014; (31): 51-65. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_ arttext&pid=S1886-58872014000200005&lng=es [Citado el 9 feb 2021].
- 18. Pérez Garriguez H. Enfermedad de Ménière: aspectos clínicos. En: Pérez Garriguez H, López Escámez JA, Morales Angulo C, Pérez Fernández N. Enfermedad de Ménière: desde las ciencias básicas hacia la medicina clínica. Ponencia Oficial del LX Congreso Nacional de la Sociedad Española de Otorrinolaringología y Patología Cervicofacial. Badalona: Euromedice Ediciones Médicas SL;2009.115-24.
- 19. Havia M, Kentala E, Pyykko I. Hearing loss and tinnitus in Meniere's disease. Auris Nasus Larynx. 2002;29(2):115-19

[251]

VILLAOSLADA-FUENTES C ET AL.

- 20. Pedro Cortez V, Homero Sariego R. Crisis otolítica de Tumarkin. Revisión de la literatura. Rev. Otorrinolaringol. Cir. Cabeza Cuello [Internet]. 2017;77(3):335-38. Disponible en: https://scielo.conicyt.cl/scielo.php?script=sci_ arttext&pid=S0718-48162017000300335&lng=es [Citado el 9 feb 2021].
- 21. Cima.aemps.es [Internet]. [Actualizado sept 2017]. Disponible en: https://cima.aemps.es/cima/pdfs/ es/ft/58336/58336_ft.pdf [Citado el 9 feb 2021].
- 22. Kaplan et al. Hearing Loss Following Intratympanic Instillation of Gentamicin for the Treatment of Unilateral Meniere's Disease. J OTOLARYN-GOL-HEAD N. 2002;31:106.
- 23. Herraiza C, Aparicio JM, Plaza G. Vía intratimpánica en el tratamiento de patología de oído interno. Acta Otorrinolaringol Esp. 2010;61(3):225-32.
- 24. J.S. Philips, B. Westerberg. Intratympanic steroids for Ménière's disease or síndrome. Cochrane Database Syst. Rev. 2011;7.CD008514.
- 25. Gallardo Flores MA, Ruiz Gonzales P, Vera Miaciro C. Gentamicina intratimpánica en dosis bajas para el control del vértigo en enfermedad de Ménière resistente al tratamiento médico. An Orl Mex. 2012;57(2). Disponible en: https://www. medigraphic.com/pdfs/anaotomex/aom-2012/ aom122f.pdf [Citado el 9 feb 2021].

[252]

ARTÍCULO ORIGINAL

REHABILITACIÓN VESTIBULAR EN PACIENTES CON VÉRTIGO Y TRASTORNO DE LA PERSONALIDAD

Vestibular rehabilitation in patients with vertigo and personality disorder

Ana GUTIÉRREZ-GALLARDO: Carmen SALOM-COVEÑAS: Eulalia Carmen PORRAS-ALONSO Hospital Universitario de Puerto Real. Servicio de Otorrinolaringología. Puerto Real. Cádiz. España Correspondencia: ana_gutierrez15@hotmail.com

Fecha de recepción: 25 de marzo de 2021 Fecha de aceptación: 25 de mayo de 2021 Fecha de publicación: 27 de mayo de 2021

Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/ROMEO) Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

RESUMEN: Introducción y objetivo: La presencia de trastornos de la personalidad en pacientes con vértigo ha sido referenciada en diferentes trabajos. Las conexiones del sistema vestibular y el procesamiento de emociones es la causa que apoya dicha asociación. La rehabilitación vestibular se perfila como el tratamiento para el vértigo crónico no compensado, pero suscita la duda de si será suficiente por si sola en pacientes con trastornos de la personalidad o si debe acompañarse de otras terapias dirigidas a estas alteraciones. El objetivo del estudio es analizar la posible influencia de los trastornos de personalidad en la autopercepción de la discapacidad mediante el Dizziness Handicap Inventory (DHI) y en los parámetros de la posturografía estática, antes y después de la rehabilitación vestibular. Método: Estudio prospectivo de 55 pacientes diagnosticados de vértigo crónico periférico o central a los que se trató con ocho sesiones de rehabilitación vestibular. Los pacientes cumplimentaron el DHI y el cuestionario Salamanca al inicio y al final del tratamiento. Resultados: El 65% de los pacientes tenían trastornos de la personalidad. Los rasgos de ansiedad se asociaron a vértigo periférico y los rasgos esquizoides a vértigo central. En todos los pacientes, la puntuación del DHI mejoró (p< 0,01), al igual que algunos parámetros del control del limite de estabilidad (p<0.01). Por otro lado, no se encontró relación entre las variables independientes edad, sexo, diagnóstico clínico y trastorno de la personalidad con los resultados. Conclusiones: En nuestro estudio, los resultados

[253]

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

muestran la eficacia de la rehabilitación vestibular en pacientes con vértigo crónico, independientemente de su asociación con trastornos de personalidad.

PALABRAS CLAVE: vértigo; trastornos de personalidad; rehabilitación vestibular.

SUMMARY: Introduction and objective: The presence of personality disorders in patients with vertigo has been reported in several articles. The connections between the vestibular system and emotion processing are the cause that supports said association. Vestibular rehabilitation is emerging as the treatment for chronic uncompensated vertigo, but it raises the question of whether it will be sufficient by itself in patients with personality disorders or whether it should be accompanied by other therapies aimed at these alterations. The aim of the study is to analyze the possible influence of personality disorders in the self-perception of disability using the Dizziness Handicap Inventory (DHI) and the parameters of static posturography, before and after vestibular rehabilitation. Method: Prospective study of 55 patients diagnosed with chronic vertigo treated with eight sessions of vestibular rehabilitation. The patients completed the DHI and the Salamanca questionnaire before and after the treatment was administered. Results: 65% of the patients had personality disorders. Anxiety traits were associated with peripheral vertigo and schizoid traits with central vertigo. In every patient, the DHI score improved (p<0,01), as well as some parameters of the control of the limit of stability (p<0,01). On the other hand, no relationship was found between the independent variables of age, sex, clinical diagnostic, personality disorder, and the results. Conclusions: In our study, the results show the efficacy of vestibular rehabilitation in patients with chronic vertigo, regardless of its association with personality disorders.

KEYWORDS: vertigo; personality disorders; vestibular rehabilitation.

INTRODUCCIÓN

El vértigo es una manifestación clínica de diferentes síndromes cuyo origen está en una disfunción vestibular y en ocasiones, en trastornos psiquiátricos o psicosomáticos. Sin embargo, la coexistencia de ambas patologías puede encontrarse hasta en un 30% de los pacientes estudiados [1]. Las alteraciones psiquiátricas a las que se asocia pueden diferir en función de la etiología del vértigo. En concreto, en la enfermedad de Ménière, el estrés psicológico relacionado con sus síntomas ha sido relacionado con niveles elevados de ansiedad y neuroticismo y en menor porcentaje, con cuadros depresivos.

En el tratamiento del vértigo y la inestabilidad crónica no compensada se ha propuesto la rehabilitación vestibular para mejorar la función del reflejo vestíbulo ocular, vestíbulo espinal así como la capacidad de habituación con otros sistemas. Se ha comprobado en diversos trabajos que existe una evidencia moderada sobre la efectividad de la rehabilitación vestibular en la mejora de los síntomas asociados a la disfunción vestibular periférica unilateral y en la percepción de la calidad de vida [2], disminuyendo su eficacia en pacientes con hipofunción vestibular bilateral y en mayores de 60 años.

En pacientes con trastornos de personalidad asociada existe cierta controversia de su eficacia como terapia única y se plantea la necesidad de incorporar una terapia cognitivo-conductual complementaria al tratamiento.

El objetivo de nuestro estudio es analizar la posible influencia de los trastornos de personalidad, establecidos por el cuestionario Salamanca [3, 4] en los resultados de la autopercepción de la discapacidad y su impacto en actividades de la vida diaria mediante el Dizziness Handicap Inventory (DHI) [5, 6] y en los resultados de la posturografía estática, antes y después de la rehabilitación vestibular.

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

MATERIAL Y MÉTODO

Se diseñó un estudio prospectivo incluyendo 55 pacientes reclutados en un periodo de 18 meses con diagnóstico de vértigo sin mejoría clínica, clasificándose en patología vestibular periférica, central y no definida o mixta. En todos ellos, persistían síntomas tras seis meses desde el inicio del proceso.

Se excluyeron pacientes menores de edad, aquellos con dificultad física ó cognitiva para la realización de los ejercicios o que abandonaron el programa de rehabilitación sin completarlo.

Los criterios clínicos para clasificar a los pacientes de patología central fueron la presencia de síntomas vertiginosos menos intensos pero más prolongados en el tiempo que en el vértigo periférico, sin relación con la posición, inicio paulatino, sin acompañarse de hipoacusia ni síntomas vegetativos y además, lleven asociados otros síntomas neurológicos como diplopía o ataxia.

En lo que respecta a la exploración en el diagnóstico de un vértigo central, sin la necesidad de que estén todas las manifestaciones presentes, se encuentran: Romberg inestable o con caída variable, test del impulso cefálico negativo, nistagmo multidireccional o vertical que no se fatiga y no se inhibe con la fijación ocular, desviación ocular vertical a la realización de Cover test, alteración de la marcha, afectación de otros pares craneales, así como la presencia de dismetría en la prueba dedo-nariz. También se realizaron pruebas complementarias como análisis de sangre, RNM craneal y de poro acústico, así como punción lumbar si fuera necesario.

En algunos casos, la etiología resulta multifactorial dando lugar a un vértigo mixto o patología vestibular no definida.

En todos los pacientes se realizó exploración neurológica, audiometría tonal, impedanciometría y reflejo estapedial. Además, se incluyó valoración de nistagmo espontáneo con gafas de Frenzel, Head-Shaking test o agitación cefálica para evaluar el diagnóstico diferencial entre un nistagmus espontáneo fisiológico y patológico, tanto central como periférico, test de impulso cefálico de Halmagyi-Curthoys para determinar el reflejo vestíbulo ocular, test de Romberg y test de Unterberger-Fukuda para valoración de la estática y la marcha, evaluación de nistagmo posicional mediante test de Dix-Hallpike y registro videonistagmográfico de pruebas calóricas Otopront® en ambos oídos. En función de la historia clínica y los resultados de la exploración se clasificaron en pacientes con vértigo periférico, central o no definido.

En la primera consulta los pacientes completaron el DHI, que cuantifica el impacto del vértigo en las actividades y situaciones propias de la vida diaria, englobando problemas específicos de orden funcional, emocional o físico, relacionados con trastornos del equilibrio; así como el cuestionario Salamanca, para valoración de trastornos de la personalidad.

En función de los resultados obtenidos del DHI, se clasificaron en pacientes con discapacidad leve de 0 a 30 puntos, discapacidad moderada de 30 a 60 puntos y discapacidad severa mayor de 60 puntos. Se consideró mejoría cuando se producía un cambio de discapacidad de severa a moderada, de moderada a leve o de severa a leve; también se calificó de mejoría una diferencia superior a 18 puntos entre el DHI inicial y final, independientemente de los grados de discapacidad.

El cuestionario Salamanca es un instrumento de cribado para evaluar los trastornos de personalidad con una alta sensibilidad y propiedades psicométricas que parecen corroborar su utilidad clínica, sobre todo en aquellos pacientes que presentan altas puntuaciones. Distribuye los trastornos de personalidad en tres grupos, grupo A con rasgos de personalidad paranoide, esquizoide y esquizotípico, grupo B con rasgos de personalidad histriónico, antisocial, narcisista, inestabilidad emocional subtipo impulsivo e inestabilidad emocional subtipo límite y grupo C con rasgos de personalidad anancástico, dependiente y ansioso.

[255]

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

Las ocho sesiones de rehabilitación, dirigidas por enfermera especializada, se iniciaron con una primera fase informativa y firma de consentimiento informado. Posteriormente se ejecutaron ejercicios de un programa estándar dirigidos a la habituación vestibular, estabilización de la mirada, mejora del control vestíbulo ocular y postural, además de actividades para mejorar el estado general del paciente. Para ello, nos ayudamos de distintos elementos y materiales como rampas, pelotas, colchonetas y sillón giratorio. Además, en cada una de las sesiones también se realizaron ejercicios de entrenamiento en la plataforma Lucerne Otopront®.

En la primera sesión los pacientes realizaron el test de Romberg con ojos abiertos, con ojos cerrados, con rotación de cabeza hacia la izquierda y rotación de cabeza hacia la derecha, así como Romberg intensificado. Se compararon los resultados del área de barrido (cm2), velocidad media (cm/s), desplazamientos máximos laterales y anteroposterior (cm) en cada una de los parámetros valorados al principio y al final de las sesiones.

De igual forma, para el estudio de los límites de estabilidad, los pacientes realizaban dos ejercicios de desplazamiento de su centro de gravedad sin cambios en la base de soporte en ocho dianas de diferente diámetro en un tiempo máximo de 90 segundos. Se compararon los resultados del área de barrido (cm2), velocidad media (cm/s) y el recorrido máximo en su desplazamiento desde el centro hasta las dianas.

Por último, se comparó el porcentaje de relleno de una diana circular con desplazamiento de su centro de gravedad sin modificar la base de sustentación en un tiempo máximo de 60 segundos entre la primera y la última sesión.

RESULTADOS

La muestra incluyó 55 pacientes, 31 mujeres (56%) y 25 hombres (44%) con una edad media de 56 años y una desviación estándar de 11,42. Los pacientes con diagnóstico de disfunción vestibular periférica correspondieron a 36 casos (65,5%),

con un predominio de pacientes con síndrome de Ménière (47%), disfunción vestibular central en 15 casos (27,3%) y disfunción vestibular no definida a 4 casos (7,2%).

El 65% de la muestra, treinta y cinco pacientes, se asociaron a trastornos de personalidad entre los que destacan los rasgos esquizoides (26%), histriónicos (26%) y ansiosos (20%). En el análisis de la relación entre los trastornos de personalidad y la diferente etiología del vértigo, encontramos un predominio de la ansiedad en el vértigo de origen periférico (30%), correspondiendo en un 57% de este grupo a pacientes diagnosticados de Síndrome de Ménière. Sin embargo, en el vértigo de origen central se observó un predominio de personalidad esquizoide alcanzando un porcentaje del 40% en este grupo (Tabla 1).

En la puntuación del DHI, si consideramos mejora en la discapacidad el cambio de discapacidad severa o moderada a discapacidad leve, ésta se observó en 35 pacientes, un 64% de la muestra. Si consideramos mejora en la discapacidad el cambio de discapacidad severa a moderada o de moderada a leve, ésta se observó en 45 pacientes, un 82% de la muestra. Si consideramos mejora la disminución en 18 puntos, ésta se observó en 48 pacientes, un 87% de la muestra.

Para valorar la diferencia de la puntuación del DHI y de resultados en los parámetros definidos previamente en cada uno de los test de la posturografía estática (área de barrido, velocidad media, desplazamientos laterales y anteroposterior, recorrido máximo en límites de estabilidad y porcentaje de cumplimiento en relleno de diana) al principio y final de la rehabilitación vestibular se aplicó el test de Wilcoxon no paramétrico para muestras pareadas.

Se obtuvieron diferencias estadísticamente significativas con una p< 0,01 en las puntuaciones del DHI inicial y final en cada una de las dimensiones (emocional, funcional y físico) para el total de la muestra y para cada uno de los subgrupos, pacientes

[256]

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

Tabla 1. Pacientes con vértigo y trastornos de personalidad asociados.

Trastornos de personalidad	Vértigo Central	Vértigo Periférico	Otros
GRUPO A			
- Esquizoide	4	5	
GRUPO B			
- Histriónico		5	
- Inestabilidad emocional impulsivo	3	1	1
- Inestabilidad emocional límite		1	
GRUPO C			
- Anancástico	2	4	
- Ansioso	1	7	1
- Dependiente	1	/	
Número Pacientes = 35	10	23	2

con trastornos de la personalidad y pacientes sin trastornos de la personalidad (Tabla 2).

Del mismo modo, se observaron diferencias significativas con una p< 0,01 en la velocidad media de los límites de estabilidad en los ejercicios de desplazamiento del centro de gravedad y en el porcentaje de relleno del círculo inicial y final, pero no en los diferentes parámetros del test de Romberg. Se analizaron los resultados en los grupos de paciente con trastornos de personalidad asociados, encontrando también diferencias estadísticamente significativas en los límites de estabilidad, aunque en las dianas de menor diámetro, la diferencia fue menor, con una p< 0,05 (Tabla 2).

Se estudió mediante el test de Chi Cuadrado la posible diferencia entre el comportamiento del DHI en el grupo de pacientes con trastorno de la personalidad y el grupo de pacientes sin trastorno de la personalidad, obteniéndose resultados que confirman un comportamiento similar en ambos grupos.

Asimismo, se evaluó mediante el test de Chi Cuadrado la posible diferencia entre la mejora objetiva del límite de estabilidad en el parámetro de velocidad media y el relleno del círculo entre el grupo de pacientes con trastorno de la personalidad y el grupo de pacientes sin trastorno, alcanzando igualmente resultados que confirman un comportamiento similar en ambos grupos.

Tabla 2. Parámetros con resultados significativos.

	Inicial (medias)	Final (medias)	Estadístico
DHI todos los grupos	68,44	27,78	p< 0,01
DHI grupo con trastorno de personalidad	69,37	25,66	p< 0,01
DHI grupo sin trastorno de personalidad	66,8	31,5	p< 0,01
LE. V. media 1 todos los grupos	5,70 cm/s	7,46 cm/s	p< 0,01
LE. V. media 1 grupo con tras. personalidad	5,96 cm/s	7,79 cm/s	p< 0,01
LE. V. media 1 grupo sin tras. personalidad	5,27 cm/s	6,87 cm/s	p< 0,01
LE. V. media 2 todos los grupos	4,71 cm/s	5,67 cm/s	p< 0,01
LE. V. media 2 grupo con tras. personalidad	4,98 cm/s	5,58 cm/s	p< 0,05
LE. V. media 2 grupo sin tras. personalidad	4,25 cm/s	5,82 cm/s	p< 0,01
LE. Círculo todos los grupos	0,65	0,78	p< 0,01
LE. Círculo grupo con tras. personalidad	0,65	0,78	p< 0,01
LE. Círculo grupo sin tras. personalidad	0,64	0,78	p< 0,01

DHI = Dizziness Handicap Inventory. LE= Límites de estabilidad. V. media = Velocidad media. Tras. Personalidad= trastorno de personalidad.

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

Con el objetivo de establecer una posible relación entre la mejora de las puntuaciones del DHI final y alguna variable, se realizó un análisis de regresión logística considerando como variables independientes la edad, sexo, presencia de trastorno de personalidad y diagnóstico clínico. Como variable dependiente se definió la mejoría en los síntomas del paciente si la puntuación del DHI final disminuía en 18 puntos. No se identificó ninguna variable que estuviera relacionada con la mejora de forma significativa, si bien en la variable edad se obtuvo un valor de p< 0,057 cercano a la significación (Tabla 3).

Igualmente, se realizó análisis de regresión logística con las mismas variables independientes y como variables dependientes la mejora en la velocidad del límite de estabilidad de cada una de las pruebas y la mejora en el porcentaje de relleno del círculo. En este caso, tampoco se obtuvieron datos que permitieran identificar alguna variable que se relacionara con la mejora de los resultados (Tablas 4, 5).

DISCUSIÓN

La presencia de alteraciones de la personalidad en el vértigo crónico tratado con rehabilitación vestibular afectó a más de la mitad de los pacientes de nuestro estudio, siendo superior al porcentaje obtenido en la mayoría de los trabajos publicados sobre la coexistencia de vértigo y patología psiquiátrica. Es discutible si la persistencia de la sintomatología tras seis meses desde su inicio mantiene la situación de estrés psicológico y, por tanto, favorece la comorbilidad psiquiátrica ó por el contrario, es la presencia de trastornos de personalidad antes

Rev. ORL, 2021, 12, 3, 253-260

Tabla 3. Regresión logística DHI

Modelo Regresión Logística DHI				
Coeficientes	Estimado	Std.error	z value	Pr(> z)
Termino Independiente	9,83562	7135,50273	0,001	0,9989
Alterado	0,6951	1,16576	0,596	0,551
Diagnóstico V. Central	-16,90036	7135,50183	-0,002	0,9981
Diagnóstico V. Periférico	-15,52415	7135,50183	-0,002	0,9983
Edad	0,11904	0,06274	1,897	0,0578
Sexo. M	20,65395	2579,1201	0,007	0,994

Tabla 4. Regresión logística. Límite de estabilidad 1.

Modelo Regresión Logística. Límite de estabilidad 1. Velocidad media				
Coeficientes	Estimado	Std.error	z value	Pr(> z
Termino Independiente	0,371804	2,138764	0,174	0,862
Alterado	-0,655863	0,600056	-1,093	0,274
Diagnóstico Central	-0,157278	1,219419	-0,129	0,897
Diagnóstico Periférico	-0,152881	1,184976	-0,129	0,897
Edad	-0,008962	0,02727	-0,329	0,742
Sexo. M	0,748302	0,604155	1,239	0,215

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

Tabla 5. Regresión logística. Límite de estabilidad 2.

Modelo Regresión Logística. Límite de estabilidad 2. Velocidad media				
Coeficientes	Estimado	Std.error	z value	Pr(> z
Termino Independiente	-1,48659	2,30074	-0,646	0,518
Alterado	-0,081005	0,063868	-1,268	0,205
Diagnóstico central	-1,74901	1,36199	-1,284	0,199
Diagnóstico periférico	-0,72989	1, 30722	-0,558	0,577
Edad	-0,03807	0,02933	1,298	0,194
Sexo. M	0,65153	0,61775	1,055	0,292

del inicio de la disfunción vestibular la que influye en el curso clínico del vértigo. Los resultados de Best establecen que, aunque inicialmente en los pacientes con vértigo se asocia un mayor porcentaje de patología psiquiátrica que en controles sanos, esta tendencia va disminuyendo a partir de los seis meses excepto en los pacientes con diagnóstico de migraña vestibular [7]. Asimismo, los trabajos realizados por Savastano sobre características psicológicas de pacientes con síndrome de Ménière concluyen que los síntomas otológicos y las observaciones psicológicas de estos pacientes no son específicas [8]. Es probable que la cronicidad de la sintomatología sea la que favorezca la presencia de las alteraciones de personalidad en estos pacientes. Esta hipótesis se ve reforzada por el mayor número de pacientes con disfunción periférica, en concreto en el síndrome de Ménière y alteraciones de la personalidad y no en pacientes con vértigo central o sin causa orgánica definida.

Con respecto a los subgrupos de los diferentes trastornos de la personalidad definidos por el cuestionario Salamanca y el diagnóstico de disfunción vestibular periférica y central, no se puede establecer ningún rasgo diferenciador a excepción del predominio del grupo C en pacientes con diagnostico de vértigo periférico. Son los rasgos de personalidad ansiosa y anancástica los predominantes en pacientes con síndrome de Ménière, coincidiendo con los estudios de Eckhardt y Lahmann, diferenciándose de los trastornos asociados a VPPB y neuritis vestibular [9, 10]. La manifestación clínica

de crisis inesperadas, característica de estos pacientes, contribuye a mantener un estado de ansiedad persistente.

Actualmente, existe una evidencia moderada sobre la rehabilitación vestibular en la mejora de los síntomas asociados a la disfunción vestibular periférica y en la percepción de la calidad de vida [11].

El hecho de que el sistema vestibular y el procesamiento de emociones compartan vías neuronales, ha sugerido que el tratamiento de rehabilitación vestibular necesitaría complementarse con otros tratamientos como la terapia cognitiva conductual (CBT) y dialéctica conductual (DBT). La revisión sistemática publicada por Schmid sobre la utilización de la psicoterapia en el vértigo consideró sólo tres ensayos clínicos del total de estudios para analizar la eficacia de la terapia cognitivo-conductual asociada a la rehabilitación vestibular [12]. El resultado obtenido con este planteamiento terapéutico es limitado. Se observa cierta eficacia en el control de algunos síntomas objetivos como los movimientos de provocación del nistagmo o la marcha, así como en la evaluación del DHI, sin evidenciar mejoría relevante en la puntuación de los cuestionarios de valoración de la ansiedad o depresión. Holmberg exploró la utilidad de la terapia combinada en pacientes con vértigo postural fóbico en un ensayo clínico con seguimiento de un año. En este estudio, si hubo un efecto significativamente mayor en el grupo que recibió terapia cognitivo-conductual que en

[259]

GUTIÉRREZ-GALLARDO A; SALOM-COVEÑAS C Y PORRAS-ALONSO E C

el grupo en el que sólo se realizó rehabilitación vestibular como tratamiento, que se reflejan en escalas de ansiedad, depresión y en el DHI; con lo que, la terapia cognitivo-conductual tiene un efecto adicional como tratamiento para una población con vértigo postural fóbico. Por lo tanto se sugiere un enfoque multidisciplinario que incluiría: tratamiento médico, terapia cognitivo-conductual y rehabilitación vestibular [13].

CONCLUSIONES

La mejora en las puntuaciones del DHI y en parámetros objetivos como la velocidad de respuestas en los límites de estabilidad tras la rehabilitación sin otra terapia complementaria en nuestro estudio, sugiere la eficacia del tratamiento en pacientes con sintomatología crónica. Por tanto, el tratamiento rehabilitador como terapia única es útil en pacientes con trastornos de personalidad asociados.

Como conclusión, nuestros resultados sugieren que en pacientes con vestibulopatía periférica crónica, el predominio de rasgos de personalidad ansiosa se relaciona esencialmente con la evolución del cuadro clínico. La rehabilitación vestibular puede ser un tratamiento eficaz en la autopercepción de la discapacidad y en la mejora de los límites de estabilidad en pacientes con disfunción vestibular superior a seis meses, independientemente de su asociación con trastornos de personalidad.

BIBLIOGRAFÍA

- Best C, Eckhardt-Henn A, Tschan R, Dieterich M. Psychiatric morbidity and comorbidity in different vestibular vertigo syndromes. Results of a prospective longitudinal study over one year. J Neurol 2009;256:58-65.
- McDonnell MN, Hillier SL. Vestibular rehabilitation for unilateral peripheral vestibular dysfunction. Cochrane Database Syst Rev 2015;13;1:CD005397.
- 3. García-Portilla MP, Bascarán MT, Saiz PA, Parellada M, Bousoño M et al. Banco de instrumentos

- básicos para la práctica de la psiquiatría clínica. 6 ed. Barcelona: Ars Médica. 2011.
- 4. Muñoz I, Toribio-Díaz ME, Carod Artal FJ, Peñas-Martínez ML, Ruiz L, Dominguez E et al. Rasgos de personalidad en pacientes migrañosos: studio multicéntrico utilizando el cuestionario de cribado Salamanca. Revista de Neurología. 2013;57(12):529-34.
- Jacobson GP, Newman CW. The development of the dizziness hándicap inventory. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1990;116:424-27.
- Pérez N, Garmendia I, Martin E, García-Tapia R. Adaptación cultural de dos cuestionarios de medida de la salud en pacientes con vértigo. Acta Otorrinolaringol Esp 2000;572-80.
- Best C, Eckhardt-Henn A, Tschan R, Dieterich M. Psychiatric morbidity and comorbidity in different vestibular vertigo syndromes. Results of a prospective longitudinal study over one year. J Neurol 2009;256:58-65.
- Savastano M, Marioni G, Aita M. Psychological characteristics of patients with Ménière's disease compared with patients with vertigo tinnitus, or hearing loss. Ear, Nose Throat J 2007;86:148-56.
- Eckhardt-Henn A, Best C, Bense S, Breuer P, Diener G, Tschan R, Dieterich M. Psychiatric comorbidity in different organic vertigo syndromes. J Neurol 2008;255:420–8.
- 10. Lahmann C, Henningsen P, Dieterich M, Feuerecker R, Cyran CA, Schmid G. Psychiatric comorbidity and psychosocial impairment among patients with vertigo and dizziness. J Neurol Neurosurg Psychiatry 2015;86:302-8.
- McDonnell MN, Hillier SL. Vestibular rehabilitation for unilateral peripheral vestibular dysfunction. Cochrane Database Syst Rev 2015;13;1:CD005397.
- 12. Schmid G, Henningsen P, Dieterich M, Sattel H, Lahmann C. Psychotherapy in dizziness:a systematic review. J Neurol Neurosurg Psychiatry 2011;82:601-6.
- 13. Holmberg J, Karlberg M, Harlacher U, Rivano-Fischer M, Magnusson M. Treatment of phobic postural vertigo: a controlled study of cognitive-behavioral therapy and self-controlled desensitization. J Neurol 2006;253:500-6.

ARTÍCULO DE REVISIÓN

FRONTAL SINUS FOREIGN BODY. A SYSTEMATIC REVIEW

Cuerpo extraño en seno frontal. Revisión sistemática

Mahomed Sidique Abdul Cadar DADÁ¹; Zulaikhah Mahomed Sidique DADÁ²; Abdul Habib Mahomed DADÁ²

¹Servicio de Anatomía Humana. Facultad de Medicina. Universidad Eduardo Mondlane. Maputo. Mozambique.

²Instituto Superior de Ciências e Tecnologia de Moçambique (ISCTEM)

Correspondence: motiar786@gmail.com

Reception date: January 5, 2021 Date of Acceptance: January 27, 2021 Publication date: January 30, 2021

Date of publication of the issue: September 1, 2021

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: Accidents with foreign bodies of all types have been described in most parts of the body. The presence of foreign bodies (FB) are common complaints in urgent and otorhinolaryngology consultations. The most common places are the natural head and neck cavities. The objective of this study is to know the situation of the foreign body in front sinus. Method: We conducted a search in PubMed, Cochrane, Scopus and WoS, selecting those articles in which the existence of foreign bodies in the frontal sinus was mentioned. Results: Of the 72 articles identified by means of information sources, 34 were excluded because they are not clinical cases, determining a selection of 38 clinical cases. Of these, 35 excluded for not complying with inclusion criteria. 3 Full-text articles assessed for eligibility. Of this, 2 Records excluded for not being related to the topic under study, only one case remaining. Discussion: Of the articles found there are few studies about foreign bodies located in frontal sinus. One of the first published cases dates from 1967, in Bristol, England. Conclusions: Accidents with foreign bodies are common in ENT clinical practice, however, in sinus location are very rare. The maxillary sinus is the most common site. Although the frontal sinus is more prominent on the face. Foreign bodies are rare. Most of them result from trauma by accident, gunshot or surgery or dental treatment. Accidents with foreign bodies are common in ENT clinical practice, however, in sinus location are very rare.

[261]

KEYWORDS: Frontal sinus; foreign body; systematic review

FRONTAL SINUS FOREIGN BODY. A SYSTEMATIC REVIEW DADÁ M S A C; DADÁ Z M S Y DADÁ A H M

RESUMEN: Introducción y objetivo: Se han descrito accidentes con cuerpos extraños de todo tipo en la mayor parte del cuerpo. La presencia de cuerpos extraños (CE) es frecuentes en las consultas de urgencia y otorrinolaringología. Los lugares más comunes son las cavidades de cabeza Objetivo: Conocer las características de los cuerpos extraños en seno frontal. Método: Realizamos una búsqueda en PubMed, Cochrane, Scopus y WoS, seleccionando aquellos artículos en los cuales se menciona la existencia de cuerpos extraños en seno frontal. Resultados: De los 72 artículos identificados mediante fuentes de información, 34 fueron excluidos por no ser casos clínicos, determinando una selección de 38 casos clínicos. De estos, 35 excluidos por no cumplir con los criterios de inclusión. 3 artículos de texto completo evaluados para elegibilidad. De este, 2 Registros excluidos por no estar relacionados con el tema en estudio, solo queda un caso. Discusión: De los artículos encontrados existen pocos estudios sobre cuerpos extraños localizados en seno frontal. Uno de los primeros casos publicados data de 1967, en Bristol, Inglaterra. Conclusiones: Los accidentes con cuerpos extraños son frecuentes en la práctica clínica ORL, sin embargo, la localización sinusal es muy rara. El seno maxilar es el sitio más común. Aunque el seno frontal es más prominente en la cara. Los cuerpos extraños son raros. La mayoría de ellos son el resultado de un traumatismo por accidente, disparo o cirugía o tratamiento dental.

PALABRAS CLAVE: Seno frontal; cuerpo extraño; revisión sistemática

INTRODUCTION

Accidents with foreign bodies of all types have been described in most parts of the body. The presence of foreign bodies (FB) are common complaints in urgent and otorhinolaryngology consultations. The most common places are the natural head and neck cavities.

FB in the paranasal sinuses are extremely rare in clinical practice [1]. More than 50% of the sinus foreign bodies are located in the maxillary sinus. The incidence of a foreign body in the frontal, ethmoid and sphenoid sinuses is nearly equal [1]. Foreign bodies in the frontal sinuses are rare [2].

The foreign bodies found in the sinuses are retained roots of teeth, fragments of wood or bamboo, pieces of cotton or gauze, bullets, shrapnel fragments, knife blade and glass fragments [1].

The most frequent cause of the presence of FB in the paranasal sinuses is maxillofacial trauma (about 70 percent), followed by trauma resulting from dental treatment [1], displacement of tooth roots inwards of the maxillary sinus [3] and self-inoculation [4].

Due to its prominent location on the head, the frontal sinus is frequently involved in facial trauma

[5], but despite its vulnerable position, the frontal sinus is not a frequent site of lodgment of foreign bodies [1, 6].

Foreign body penetration on frontal sinus is of particular apprehension because of the close proximity of the frontal lobe and duramater to the posterior sinus wall [5].

The existing literature on frontal sinus foreign body is limited [6].

The presence of foreign bodies should be suspected in lacerations of frontal region in cases of maxillofacial trauma [1], and so, in the case of trauma to the frontal sinus, it is important to carefully explore the cavity in search of any fragment of FB [5, 7].

The presence of frontal sinus FB can be asymptomatic and go unnoticed for years or have recurrent infections due to obstruction of the nasofrontal canal [6].

Frontal sinusitis can result from the entry of microorganisms together with the FB or by blocking the nasofrontal canal [8]

Access to the frontal sinus for removal of a foreign body typically needs an external ethmoidectomy approach or osteoplastic flap [8].

FRONTAL SINUS FOREIGN BODY. A SYSTEMATIC REVIEW

DADÁ M S A C; DADÁ Z M S Y DADÁ A H M

MATERIAL AND METHODS

Type of study: systematic review of the topic. Research question: How foreign bodies appear in the human frontal sinus and which foreign bodies are more frequent?

Eligibility criteria: For the selection of studies, the following inclusion criteria were used:

- Language: Portuguese, English or Spanish.
- Publication date: 2010 to 2020.
- Availability: full text.
- Article type: case report.
- Traumatism or iatrogenic events in human resulting in foreign bodies in the frontal sinus.

Exclusion criteria:

- · Repeated studies.
- Publications out of context.

Information sources: The studies were retrieved from PubMed (https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/), Cochrane (https://es.cochrane.org/es), Scopus (https://www.scopus.com/sources.uri) and Wos (https://www.recursoscientificos.fecyt.es/), Scielo (Scientific Electronic Library Online), from 01 January 2010 to 18 November 2020 (last date of search). The search included Portuguese, English and Spanish studies, following the PRISMA guidelines for systematic reviews (https://www.equatornetwork.org/reporting-guidelines/prisma/).

Period: Information sources were consulted between 24 December 2020.

The search strategy and article selection are summarized in Figure 1.

Search: "Frontal sinus" AND "Foreign body" Study selection:

1st Stage - the titles and abstracts of the references identified through the search strategy were evaluated and the potentially eligible studies were pre-selected.

2nd Stage - the full text evaluation of the preselected studies was carried out to confirm the eligibility.

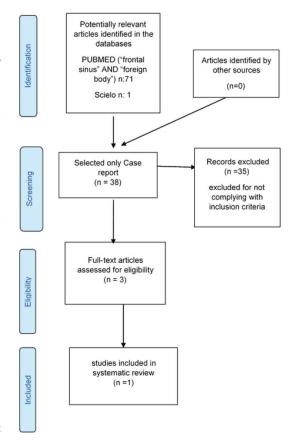


Figure 1: General description of the systematic literature review process.

Data collection process:

Data were extracted by reviewer and checked by the remaining reviewers for accuracy. We used Rayyan* (Mourad Ouzzani, Hossam Hammady, Zbys Fedorowicz, and Ahmed Elmagarmid. Rayyan — a web and mobile app for systematic reviews. Systematic Reviews (2016) 5:210, DOI: 10.1186/s13643-016-0384-4; https://rayyan.qcri.org/welcome) for the selection and for the duplication extraction process.

Data items: The variables for which data were sought age, sex, symptoms, etiology and type of

FRONTAL SINUS FOREIGN BODY. A SYSTEMATIC REVIEW DADÁ M S A C; DADÁ Z M S Y DADÁ A H M

foreign bodies (Human, Sinusal trauma, Foreign

Risk of bias across studies: Since only 1 study were found eligible for this review, we considered there is a publication bias in this review and any conclusion from this study will only reflect this one scenario.

Ethical considerations: Being a research based on the literature review, it did not need prior ethical permission.

Weaknesses and limitations: Limited number of studies founded.

We used the PRISMA checklist when writing our report [9].

RESULTS

Of the 72 articles identified by means of information sources, 34 were excluded because they were not clinical cases, determining a selection of 38 clinical cases. Of these, 35 were excluded for not complying with inclusion criteria. 3 Full-text articles assessed for eligibility. Of this, 2 records excluded for not being related to the topic under study, only one case remaining.

DISCUSSION

Of the articles found there are only one study about foreign bodies located in frontal sinus from Ear, Nose & Throat Journal [10]. One patient of 34-year-old man with headache and fever for the past 7 days was diagnosed as having a comminuted fracture of the frontal sinus, where he had had a cranioplasty 15 years earlier with Methyl methacrylate to obliteration of the frontal sinus. The MRI suggested an abscess in the left frontal sinus (iatrogenic event). Methyl methacrylate is a monomer of acrylic resin usually used in a variety of medical, dental, applications.

The major limitation of this research is the number of articles found in a vast period of 10 years in three languages. However, in the gray literature we find many clinical cases.

CONCLUSIONS

Accidents with foreign bodies are common in ENT clinical practice, however, in sinus location are very rare. The maxillary sinus is the most common site. Although the frontal sinus is more prominent on the face. Foreign bodies are rare. Most of them result from trauma by accident, gunshot or surgery or dental treatment.

REFERENCES

- 1. Garces SM, Norris CW. Unusual frontal sinus foreign body. J Laryngol Otol. 1972;86(12): 1265 - 8.
- 2. F Payne BR. Case reports Foreign bodies in the frontal sinus. Br J Radial. 1967;40.
- Morais HHA, Rocha NS, Gondim DGA, Melo AR. Corpo estranho no seio maxilar: relato de caso atípico. Rev Cir Traumatol Buco-Maxilo-Fac. 2007;7(1):65-70.
- 4. Lima MM, Moreira CA, da Silva VC, de Freitas MR. 34 Self-inflicted foreign bodies in the maxillary sinus. Braz J Otorhinolaryngol. 2008;74(6):948.
- Kaplan AS, Green JDJ, McCaffrey TV. Unsuspected foreign body in the frontal sinus and anterior cranial fossa. Ann Emerg Med. 1989; 18(9):988-90.
- Cukurova I, Demirhan E, Gumussoy M, Yalcin Y, Yigitbasi OG. Foreign body in frontal sinus: case report. Turk Otolarengoloji Arsivi/Turkish Arch Otolaryngol. 2013;51(4):123-6.
- Aydin S, Şanli A, Eken M, Hardal Ü. Glass particles in the frontal sinus. Turkish J Med Sci. 2009;39(2):313-5.
- Calhoun KH, Peters BR, Stiernberg CM, Quinn FB. Magnet extraction of frontal sinus foreign body. Otolaryngol Neck Surg. 1988;99(1):76-8.
- Moher D, Liberati A, Tetzlaff J, Altman DG, The PRISMA Group. Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. PLOS Med. 2009; 6(7):e1000097.

[264]

FRONTAL SINUS FOREIGN BODY. A SYSTEMATIC REVIEW DADÁ M S A C; DADÁ Z M S Y DADÁ A H M

10. Kim JS, Kwon SH, Lee EJ. Shiny foreign body in the frontal sinus causing epidural abscess. Ear, Nose Throat J. 2020;99(2):109-10.

RELATED LINKS

Mourad Ouzzani, Hossam Hammady, Zbys Fedorowicz, and Ahmed Elmagarmid. Rayyan — a web and mobile app for systematic reviews. Systematic Reviews (2016) 5:210, DOI: 10.1186/s13643-016-0384-4; https://rayyan.qcri.org/welcome

[265]

ARTÍCULO DE REVISIÓN

TRATAMIENTO DE LA DISFAGIA EN LA DISTROFIA MUSCULAR OCULOFARÍNGEA. REVISIÓN SISTEMÁTICA

Treatment of Dysphagia Oculopharyngeal muscular dystrophy. Systematic review

Cristina Isabel SANZ-SÁNCHEZ; Óscar Emilio CAZORLA-RAMOS; Sofía VALLE-OLSEN, Jesús VERGE-GONZÁLEZ; José Antonio PÉREZ-ARCOS

Hospital Universitario Virgen de la Victoria. Servicio de ORL. Málaga. España

Correspondencia: cristinasanzsanchez03@gmail.com

Fecha de recepción: 8 de marzo de 2021 Fecha de aceptación: 29 de marzo de 2021 Fecha de publicación: 6 de abril de 2021

Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de intereses Imágenes: Los autores declaran haber obtenido las imágenes con el permiso de los pacientes Política de derechos y autoarchivo: se permite el autoarchivo de la versión post-print (SHERPA/RoMEO) Licencia CC BY-NC-ND. Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivar 4.0 Internacional Universidad de Salamanca. Su comercialización está sujeta al permiso del editor

RESUMEN: Introducción y objetivo: La disfagia es una de las principales preocupaciones en la distrofia muscular oculofaríngea (DMOF) puesto que puede resultar en complicaciones importantes como neumonía aspirativa, reducción de la calidad de vida e incremento en la mortalidad. El objetivo fue evaluar y comparar los distintos tratamientos disponibles en la actualidad para el tratamiento de la disfagia en la DMOF. Método: Se realizó una revisión sistemática consultando PubMed, EMBASE, Cochrane Library y Scielo de artículos publicados en el periodo 1990-2020 seleccionando aquellos artículos en los cuales se trate la disfagia en la DMOF. Resultados: Se incluyeron 9 artículos, con un total de 164 pacientes con esta enfermedad en los que la miotomía quirúrgica del esfínter esofágico superior es el procedimiento más frecuentemente realizado, en 6 series con 117 pacientes, seguido de la dilatación endoscópica y la inyección de toxina botulínica. La mejoría total en las 9 series ronda el 77,3%, siendo de 84,66% si tenemos en cuenta únicamente las miotomías quirúrgicas. La incidencia de complicaciones es baja, no encontrando mortalidad asociada en ninguna de ellas. Discusión y conclusiones: El pronóstico de la DMOF viene condicionado por el grado y severidad de la disfagia, por lo que su tratamiento supone una medida prioritaria para estos pacientes. La miotomía del

[267]

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

esfínter esofágico superior es el más efectivo y más utilizado de entre todas las posibilidades, con tasas de mejoría elevadas y un bajo índice de complicaciones.

PALABRAS CLAVE: Distrofia muscular oculofaríngea; disfagia; tratamiento; miotomía del esfínter esofágico superior; revisión sistemática.

SUMMARY: Introduction and objective: Dysphagia has been reported to be a concern in adults with oculopharyngeal muscular dystrophy (OPMD). This problem can result in several complications including aspiration pneumonia, reduced quality of life and an increase in mortality rate. The objective was to evaluation and comparison of the different current treatments available. Method: We performed a systematic review in the databases PubMed, EMBASE, Cochrane Library and Scielo published in the period 1990-2020, selecting those articles in wich the dysphagia in OPMD is treated. Results: We include 9 articles with a total of 164 with this disease, in which surgical myotomy of the upper esophageal sphincter was the most frequently performed procedure in 6 series with 117 patients, followed by endoscopic dilatation and botulinum toxin. The improvement in the 9 series is around 77, 3% and if we consider surgical myotomies is 84, 66%. The incidence of complications is low, we do not find associated mortality in any of the series. Discussion and conclusions: The priority of patient's treatment is determining the degree and severity of the dysphagia that is the main factor determining prognosis. Upper esophageal sphincter myotomy is the most effective and widely used of all the possibilities, with high rate of success and low rate of complications.

KEYWORDS: Oculopharyngeal muscular dystrophy; dysphagia; treatment; upper esophageal sphincter myotomy; systematic review.

INTRODUCCIÓN

La distrofia muscular oculofaríngea (DMOF) es una entidad rara, pero bien documentada que afecta de forma específica a la musculatura elevadora de los párpados y faríngea [1]. La incidencia y prevalencia de la enfermedad es baja a nivel mundial, siendo superior en la población francocanadiense e israelí de Uzbekistán, con una prevalencia de 1:1000 y 1:600 respectivamente [1, 2]. Taylor describió la DMOF por primera vez en 1915 y Víctor en 1962 apuntó hacia el origen miopático de la enfermedad. Se trata de una patología de origen genético con un patrón de herencia dominante y penetrancia incompleta. Se presenta entre la quinta y sexta década de la vida, sin predominio entre sexos [1, 2]. En 1998 Brais describió la alteración genética producida por una expansión del triplete GCG en el axón 1 del gen PABPN1 del cromosoma 14 [2, 3].

Los síntomas que orientarán al diagnóstico son la ptosis palpebral sin oftalmoplejia, que suele ser la primera manifestación, y la disfagia orofaríngea que aparecerán de forma progresiva. Los estudios radiológicos y la manometría esofágica muestran dificultad para el paso del bolo alimenticio hacia el esófago a través del esfínter esofágico superior (EES) e incoordinación en la función esfinteriana con la musculatura faríngea y esofágica, a lo que se suma la debilidad de la musculatura faríngea que hace que sus contracciones sean ineficaces, impidiendo la propulsión del bolo alimenticio hacia el esófago. Las consecuencias son regurgitaciones faringorales y faringonasales, frecuentemente asociadas a aspiraciones laringotraqueales que aumentan conforme la enfermedad sigue su curso [4, 5].

La disfagia supone el principal factor pronóstico de esta enfermedad [1-3], comenzando con una dificultad deglutoria para sólidos hasta llegar a impedir también los líquidos, incrementando

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

notablemente el tiempo necesario para deglución [2, 6] y acompañándose de alteraciones de seguridad y de eficacia [2, 6], por lo que su tratamiento es fundamental. El objetivo principal en el tratamiento de la disfagia de estos pacientes es facilitar el paso del alimento desde la faringe al esófago cervical, a través del esfínter esofágico superior [6, 7], ya que debido al carácter genético de la enfermedad no existen tratamientos curativos [3, 8]. Se tomarán todas aquellas medidas que permitan reducir el impacto de la disfagia en la desnutrición, en las posibles aspiraciones laringotraqueales y sus complicaciones asociadas. Dada la evolución progresiva de la clínica, es de suma importancia la adaptación del tratamiento a la sintomatología presentada en cada momento [3]. En este artículo pretendemos realizar una revisión sistemática de aquellos estudios publicadas en la literatura en los que se realiza alguno de los tratamientos disponibles en la actualidad para la disfagia en la DMOF.

MATERIAL Y MÉTODO

Revisión sistemática en las bases de datos PubMed, EMBASE, Cochrane Library y Scielo de artículos publicados en el periodo 1990-2020, sin restricción de idioma. Se completó la búsqueda mediante revisión de las citas bibliográficas de los estudios identificados. La estrategia empleada en PubMed fue ((Therapy Oculopharyngeal muscular dystrophy AND (1990:2020[pdat])) OR (Treatment Oculopharyngeal muscular dystrophy AND (1990:2020[pdat]))) OR (Dysphagia Oculopharyngeal muscular dystrophy AND (1990:2020[pdat])). En EMBASE, Scielo y Cochrane se emplearon búsquedas similares.

En la figura 1 se resume la selección de artículos mediante diagrama de flujo PRISMA [9]. Se obtuvieron 754 artículos en una selección inicial. Tras eliminar duplicados y aquellos que no cumplen criterios de inclusión se obtuvieron 27 artículos que se revisaron a texto completo y se excluyeron 18 por tratarse de series duplicadas, cartas al editor,

tratamientos en distintas patologías productoras de disfagia orofaríngea (incluyendo DMOF) sin hacer distinción entre ellas en los resultados, publicaciones que no aportaban información relevante para el estudio, descripciones de complicaciones quirúrgicas sin informar resultados, casos clínicos aislados o series de casos con pocos pacientes (n <5).

Criterios de inclusión: publicaciones con series de casos, estudios de casos y controles o ensayos clínicos que se realice tratamiento instrumental para la disfagia en la DMOF.

Criterios de exclusión: casos clínicos, revisiones, artículos en los que no se especifica el tratamiento realizado, tratamientos para otras enfermedades miopáticas o genéticas así como para la ptosis palpebral, comparaciones entre enfermedades musculares sin hacer referencia al tratamiento, estudios de diagnóstico y tratamientos genéticos, evaluación de discapacidades, calidad de vida, estudios de imagen (TC, RM), de hallazgos en manometría, videofluoroscopia y anatomía patológica, estudios mitocondriales, moleculares, genéticos, fenotípicos y neurofisiológicos, ensayos en animales y de manejo anestésico.

Se realizó la selección de artículos de forma estandarizada siguiendo los criterios anteriormente descritos. Tras el cribado inicial, dos autores revisaron de forma independiente los textos completos de los artículos, comprobando el cumplimiento de los criterios de selección. Diferencias entre los dos autores se resolvieron por consenso, y en caso de no existir acuerdo, un tercer autor tomaba la decisión. Finalmente, se obtuvieron 9 estudios que cumplían los criterios de inclusión para esta revisión.

De cada documento se extrajeron por duplicado las siguientes variables: autor, año, número de pacientes en cada estudio, tipo de procedimiento, número total de procedimientos realizados, tiempo de seguimiento en meses, edad media, porcentaje de pacientes que presentan mejoría, complicaciones, su incidencia, y longitud de sección del esfínter esofágico superior en las miotomías del EES.

La calidad metodológica de los estudios y la posibilidad de sesgo fue evaluada por los dos

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

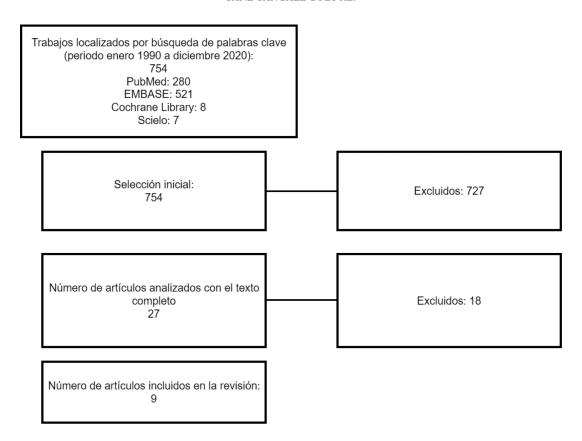


Figura 1. Diagrama de flujo de las fases de la revisión sistemática (PRISMA).

autores de forma independiente. Se consideró la posibilidad de sesgo de publicación.

RESULTADOS

Se seleccionaron 9 artículos de la búsqueda bibliográfica que cumplían con los criterios de inclusión cuyos datos se resumen en la Tabla 1. En ella se recoge el número de pacientes tratados en cada serie que ronda entre 6 y 39, con un total de 164 pacientes en el cómputo global de todas ellas. Se detallan los procedimientos realizados en cada una, siendo la miotomía quirúrgica la más frecuente, en 6 series, con un total de 117 pacientes, seguido de la dilatación con balón en 2 con 23 pacientes y una en la que realizó inyección de toxina botulínica con 24 pacientes. El número total de procedimientos realizados coincide con el número de pacientes incluidos en cada estudio, excepto en las inyecciones de toxina botulínica (66 procedimientos) y en una serie en la que se realizaron 65 dilataciones con balón.

El seguimiento de los pacientes medido en meses es variable, oscilando entre 6 y 156, con una media de 32,88 meses, retirados los valores extremos. La edad media de los pacientes en las que se realiza el procedimiento se encuentra en 65 años, oscilando entre 58 y 71,2 años. La mejoría en porcentaje de los pacientes oscila entre un 55,7% y un 100% con una media de 77,3% en el total de las series y de un 84,66% si tomamos únicamente las miotomías quirúrgicas.

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

Tabla 1. Series que recogen procedimientos terapéuticos realizados para la disfagia en la DMOF.

Autor	N	Procedmiento	Procedimientos realizados	Seguimiento (meses)	Edad media	Evolución mejoría clínica (%)
Coiffier 2006 [1]	39	Miotomía quirúrgica	39	51,2	69	57
Duranceau 1980 [15]	15	Miotomía quirúrgica	15	22,2	63,9	100
Fradet 1997 [12]	37	Miotomía quirúrgica	37	74,4	71,2	81
Gómez-Torres 2012 [11]	6	Miotomía quirúrgica	6	23	67,1	100
Manjaly 2012 [16]	9	Dilatación balón	65	156	58	73
Mathieu 1997 [6]	14	Dilatación balón	14	18	66,2	55,7
Périé 1997 [13]	12	Miotomía quirúrgica	12	30	667,9	83
St Guily 1994 [14]	8	Miotomía quirúrgica	8	20	59	87
Youssof 2014 [4]	24	Inyección toxina botulínica	66	6	63	59

En la Tabla 2, se indica la incidencia de complicaciones tras la técnica realizada en cada una de las series, detallándose las mismas. La tasa más alta se estima en un 44% en la única serie tratada con toxina botulínica, siendo un 3,77% de media en las 4 series tratadas mediante miotomía que recogen esta variable e inexistentes en las dos series tratadas mediante dilatación con balón esofágico. No se evidencia mortalidad relacionada de forma directa a ninguno de los procedimientos.

En la Tabla 3 se recoge la longitud de la miotomía quirúrgica realizada en 4 de las 6 series. Se encuentra en torno a 4 y 6 cm, excepto en una de ellas en la que realizan una incisión superior de 8 a 10 cm.

DISCUSIÓN

Se identificaron 9 series de pacientes en los que se realice tratamiento instrumental de la disfagia en la DMOF. No se han encontrado estudios con medidas rehabilitadoras o farmacoterapia vía oral. El tratamiento debe iniciarse con medidas conservadoras, entre ellas destacan los cambios posturales o las pruebas con diferentes texturas de alimentos. En casos en los que se demuestre mediante manometría la existencia de hipertonía del EES, se pueden utilizar fármacos del grupo antagonistas del calcio tipo nifedipino (20-40 mg sublingual) o vasodilatadores como el dinitrato de isosorbide (5 mg antes de las comidas) [3]. Generalmente no se realizan estudios acerca de la efectividad de la

Tabla 2. Porcentaje de pacientes con cualquier complicación tras la intervención y detalle de las mismas.

Autor y año referencia	% complicaciones	Complicaciones
Coiffier 2006 [1]	0,025%	Empeoramiento transitorio de la disfagia.
Duranceau 1980 [15]		No recogido.
Fradet 1997 [12]	0%	Ninguno
Gómez-Torres 2012 [11]	15%	Parálisis CVI.
Manjaly 2012 [16]	0%	Ninguna.
Mathieu 1997 [6]	0%	Ninguno.
Périé 1997 [13]	0,08%	Sección mucosa cricofaríngea.
St Guily 1994 [14]		No recogido.
Youssof 2014 [4]	44%	Disfonía (24%), empeoramiento de la disfagia (24%), mareo o síncope (8%), reflijo (5%), dolor en lugar punción (5%), rash (2%) y laringospasmo (2%).

[271]

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

Tabla 3. Miotomías del complejo esfinteriano superior. Sección realizada en centímetros.

Autor y año referencia	Longitud sección esfínter esofágico superior		
Coiffier 2006 [1]	No recogido.		
Duranceau 1980 [15]	5 cm.		
Fradet 1997 [12]	8-10 cm.		
Gómez-Torres 2012 [11]	No recogido.		
Périé 1997 [13]	4-6 cm.		
St Guily 1994 [14]	4-5 cm.		

rehabilitación en el tratamiento de la DMOF, pero sí que existen casos publicados en los que evolucionan favorablemente con el mismo [3, 8, 10]. En caso de que estas primeras medidas fracasen, se recurrirá a técnicas invasivas. Dentro de este grupo existen distintas opciones como la miotomía extramucosa del esfínter esofágico superior observada en 6 series se nuestra revisión [1, 11-15], dilatación endoscópica con balón identificada en 2 de ellas [14, 16], inyección con toxina botulínica del músculo cricofaríngeo en una serie [4], miotomía transmucosa endoscópica con láser CO2 o KTP, que utilizan Coiffier et al [1] en 4 pacientes tras recurrencia o fracaso de la cirugía y la gastrostomía percutánea. La indicación de gastrostomía percutánea se reserva para aquellos casos en los que fracasan las medidas mencionadas con anterioridad o para casos en los que el riesgo de aspiración laringotraqueal sea muy elevado [3], aunque no previene completamente las mismas [1, 11].

La miotomía extramucosa del esfínter esofágico superior es el más común y efectivo tratamiento para la disfagia en la DMOF. Esta intervención permite eliminar el obstáculo generado por la incoordinación muscular del proceso deglutorio [1], proporcionando una mejoría inmediata en la mayor parte de los casos. En 6 de los 9 estudios [1, 11-15] se utiliza y describe esta técnica, prefiriendo en 5 de ellas [1, 12-15] el acceso mediante cervicotomía izquierda, ya que el nervio recurrente en esta localización se encuentra en el ángulo traqueoesofágico, lejos de la zona de abordaje. Tras

acceder a la faringe en su línea media, se procede a realizar la sección extramucosa que debe ser vertical, mediante un único corte para prevenir fibrosis cicatricial secundaria, de unos cuatro-seis centímetros que incluya al músculo cricofaríngeo, la porción inferior del constrictor inferior y los primeros centímetros del esófago. Todos ellos [1, 11-15] coinciden en que la sección debe incluir los 3 músculos. En un estudio que se comparaba las mediciones de presión esfinteriana tras la sección única del cricofaríngeo, y del cricofaríngeo junto con el constrictor inferior, mostraron que la sección conjunta de ambos músculos produce mayor reducción en la presión con resultados estadísticamente significativos (p<0,005) [17]. En la Tabla 3 se recoge la longitud de las secciones que se realiza en las distintas series, destacando el grupo de Fradet [12] en que realizan una sección de mayor longitud que el resto, de 8 a 10 cm, para asegurar la inclusión de estos 3 componentes musculares, sin observar complicaciones postquirúrgicas como vemos en la Tabla 2 y con un 81% de pacientes con mejoría clínica. De manera contraria, Gómez-Torres [11] publicó sus resultados llevando a cabo un abordaje mediante cervicotormía derecha en seis pacientes. Dos tercios de los pacientes presentaron importante mejoría clínica, con una recuperación parcial el tercio restante. No realizaron estudios manométricos ni videofluoroscopia que objetivaran los resultados. Uno de ellos presentó una parálisis unilateral cordal izquierda en paramediana, sin afectación de luz glótica, que no se justifica por el abordaje derecho, ya que la lesión es contralateral. En todas ellas se prefiere colocar una sonda nasogástrica e iniciar tolerancia oral a las veinticuatro horas de la intervención.

Las series que encontramos en la literatura no son muy extensas debido a la rareza de la entidad. En 2006 se publicó un estudio con 53 pacientes, que tras excluir fallecidos y pérdidas de seguimiento, obtuvo 39 pacientes en los que midieron y compararon resultados al mes de la intervención y tardíos, con una media en seguimiento de 51,2

[272]

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

meses. Al mes obtuvieron un éxito de un 90% con un fracaso limitado a cuatro pacientes. A largo plazo, el 57% de los casos continuaban con buenos resultados, el 34% presentaron progreso de la enfermedad y el 9% restante fallecieron. Observaron que el resultado postoperatorio inmediato puede ser un factor predictivo de los resultados a largo plazo en términos de recurrencia y duración [1]. En 3 pacientes en los que se observó progresión de la enfermedad y en uno de los que fracasaron inicialmente se realizó una miotomía transmucosa con láser CO2 con mejoría en 3 de ellos a largo plazo. Kocdor [18] publicó una revisión sistemática donde comparó los resultados de 15 estudios en los que se realizaba miotomía vía endoscópica o miotomía quirúrgica. Mediante regresión logística, observaron un aumento en la tasa de éxito mediante técnica endoscópica (p=0,0025; OR: 2,24). Sin embargo, no se trataba de estudios que comparen pacientes con DMOF y la miotomía en ambos casos se limitaba al músculo cricofaríngeo. En la bibliografía encontramos escasa literatura en la utilización de la miotomía endoscópica en esta enfermedad, no así para otras patologías, y su uso se limita a pequeños grupos de pacientes [1, 12, 14], informándose una baja tasa de complicaciones [1].

La serie de Fradet [12] con 37 pacientes, es la que presenta una edad media en la intervención más elevada, siendo de 71,2 años. En ella, con un seguimiento de 74,4 meses (6,2 años) los síntomas mejoraron por completo en un 49% y parcialmente en un 32%. Por tanto, un 81% de los pacientes mejoraron, persistiendo disfagia severa en un 19%.

Périé et al [13] publicaron una serie con veintidós casos de DMOF en los que se realizó miotomía en pacientes seleccionados, descartando los que rechazaron la intervención y aquellos con resultados manométricos de aperistalsis faríngea, excepto un único caso que se introdujo en el estudio. Finalmente, se intervinieron 12 pacientes, 10 de los cuales presentaron mejoría completa de los síntomas, mejoría parcial en uno y fracaso en otro. Los resultados manométricos de estos pacientes mostraron una

actividad propulsiva faríngea residual disminuida en todos ellos a excepción de aquel que no mejoró y que presentaba aperistalsis. Este paciente falleció a los 2 meses tras la cirugía de una neumonía aspirativa. A los 24 meses, se observó recurrencia en un paciente de los que previamente habían mejorado, clínicamente se había deteriorado con afectación de extremidades y pérdida de peso y manométricamente también, presentando aperistalsis faríngea. Encontraron, como factores predictivos de una buena evolución, la adecuada propulsión faríngea residual y un estado nutricional adecuado. En este trabajo identificaron las posibles causas de fracaso de una miotomía: progresión de la enfermedad, generalmente después de un periodo de mejoría tras la cirugía; la realización de una miotomía incompleta, es decir, no incluir el complejo esfinteriano superior completo; y por una insuficiente actividad propulsiva faríngea. Hay autores que contraindican la intervención en casos de aperistalsis faríngea [1, 13, 14], por lo que es importante realizar una correcta historia clínica, videofluoroscopia, manometría y una fibroscopia durante la deglución para indicar aquellos casos que se beneficiarán de la intervención [14].

En 1994 [14], se publicó un estudio con 34 pacientes que padecían distintas enfermedades musculares productoras de disfagia orofaríngea. En 11 se realizó una miotomía quirúrgica, presentando 8 diagnóstico de DMOF, con una media de 59 años y un 87% de mejoría tras un seguimiento de 20 meses. Munitiz [19] documentó 3 casos de DMOF en la misma familia en la que en dos de ellos se llevó a cabo una miotomía quirúrgica con resolución de la disfagia a los 16 meses y 3 años respectivamente, sin evidenciar complicaciones.

En 1980 Duranceau [15] comparó clínica, manométricamente y radiológicamente 15 pacientes con DMOF con un grupo control previa y posteriormente a la realización de una miotomía. Evidenciaron a nivel del esfínter esofágico superior una clara disminución en la presión de reposo y durante la contracción del esfínter, sin alteraciones en la función faríngea.

[273]

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

La dilatación con balón puede utilizarse como una alternativa en aquellos pacientes en los que no se puede realizar una miotomía por vía transcervical debido al elevado riesgo quirúrgico, ya que permite su realización bajo sedación y es menos invasivo [6, 8, 18]. En nuestro estudio se recogen dos series de 14 [6] y 9 [16] pacientes. Los resultados de Mathieu et al indican que aquellos pacientes con una disfagia moderada presentan una mejoría mayor que aquellos con una disfagia severa [6]. En esta serie se realizó una dilatación a cada paciente observando los resultados a los 18 meses con una tasa de mejoría de 55,7%. Sin embargo, en el caso de Manjaly [16] se realizaron 65 dilataciones en 9 pacientes (media 7,2 por paciente con un rango de 1 a 16) en 156 meses que duró el seguimiento (media de 18,8 meses entre cada dilatación por persona) con una mejoría del 73%. Esta técnica presenta una baja tasa de complicaciones, no observando ninguna en las dos series, siendo las principales y más relevantes la perforación esofágica y la hemorragia [6].

La utilidad de la toxina botulínica en la disfagia se basa en su capacidad para producir parálisis y la consecuente relajación del músculo cricofaríngeo que permite la deglución en pocos días. La indicación actual es la inyección de toxina en el músculo mediante endoscopia de unas 50 a 100 Unidades por sesión [11]. Pero también se puede recurrir al acceso cervical con anestesia general o de forma percutánea con anestesia local guiada por electromiografía [8, 18]. En nuestra revisión únicamente tenemos una serie en la que se infiltraron en 66 ocasiones a 24 pacientes, con una media de procedimientos por individuo de 3 (rango de 1 a 13), la media de tiempo entre ellos fue de 6 meses (rango 2 a 39 meses) con una media de seguimiento de 132 meses. En él utilizaron 20 U de media con una infiltración bilateral en el 68%.

Schneider et al fueron los primeros investigadores en utilizar la toxina botulínica en el músculo cricofaríngeo para el tratamiento de la disfagia relacionada con disfunciones del EES. En su serie de siete casos las invecciones fueron realizadas vía endoscópica con 80-100U obteniendo un resultado satisfactorio en cinco de los siete casos [20]. Poco tiempo después, Blitzer y Brin [14] llevaron a cabo la inyección por vía transcutánea en seis pacientes logrando un resultado satisfactorio en todos ellos. Algunos autores [8, 18, 21] utilizan esta técnica como screening previo a una miotomía. El efecto es reversible y se va resolviendo de forma gradual, pero pueden repetirse las sesiones [11]. En la actualidad, se utiliza en pacientes con elevado riesgo quirúrgico descartados para cirugía [11]. El grupo de Restivo considera de gran importancia valorar la dilución de la toxina botulínica al infiltrar [22]. Utilizan una dilución de 1 o 2 ml para evitar efectos adversos a dosis superiores. Concluyen en utilizar diluciones de 1 ml cuando se va a inyectar de forma bilateral y de 2 ml cuando se va a tratar un único lado, no superando en ningún caso esta cantidad. Por otro lado, Coiffier et al [1] no creen que sea útil la inyección de una sustancia que produce parálisis en una musculatura que presenta degeneración y fibrosis. Como complicaciones de esta técnica, puede aparecer un empeoramiento de la disfagia, así como, parálisis unilateral o bilateral de las cuerdas vocales causando disfonía o disnea [18, 22] por lo que es importante utilizar dosis bajas de toxina botulínica [22].

CONCLUSIONES

La DMOF es una entidad poco frecuente que cursa con disfagia y que debe incluirse en el diagnóstico diferencial de dificultad deglutoria orofaríngea. Se trata de una patología grave que condiciona un severo deterioro de la calidad de vida del paciente, en gran parte por la disfagia que provoca, siendo ésta el principal factor pronóstico.

En esta revisión sistemática se evalúan los distintos tratamientos disponibles en la actualidad para la disfagia en adultos con DMOF, de los que el tratamiento más efectivo y más comúnmente utilizado es la miotomía del complejo esfinteriano superior para aquellos pacientes con un compromiso

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

deglutorio moderado-severo. Esta técnica cuenta con tasas de éxito elevadas y un bajo índice de complicaciones. Aun así, debemos conocer el resto de terapias disponibles en la actualidad ya que no siempre se podrá recurrir a este procedimiento.

BIBLIOGRAFÍA

- 1. Coiffier L, Périé S, Laforet P, Eymard B, St Guily JL. Long-term results of cricopharyngeal myotomy in oculopharyngeal muscular dystrophy. Otolaryngol Head Neck Surg. 2006;135:218-22.
- 2. Díaz de Liaño A, Fernández RL, Yarnóz IC, Artieda SC, González AG, Artajona RA, et al. Distrofia muscular oculofaríngea: tratamiento quirúrgico. Rev Chil Cir. 2009;61(4):360-5.
- 3. Hernández-Montero E, Mesa-Marrero M. Distrofia muscular óculo-faríngea: presentación de un caso y revisión de la literatura. Act Otol Esp. 2012;63(6):482-4.
- 4. Youssof S, Schrader RM, Romero-Clark C, Roy G, Spafford M. Safety of botulinum toxin for dysphagia in oculopharyngeal muscular dystrophy. Muscle Nerve. 2014;49(4):601-3.
- 5. Duranceau A. Cricopharyngeal myotomy in the management of neuogenic and muscular dysphagia. Neuromuscul Disord. 1997;7:85-9.
- 6. Mathieu J, Lapointe G, Brassard A, Tremblay C, Brais B, Rouleau GA, et al. A pilot study on upper esophageal sphincter dilatation for the treatment of dysphagia in patients with oculopharyngeal muscular dystrophy. Neuromusc Dis. 1997;7:S100-4.
- 7. Taillerfer R, Duranceau A. Manometric and radionuclide assessment of pharyngeal emptying before and after cricopharyngeal myotomy in patients with oculopharyngeal muscular dystrophy. J Thorac Cardiovasc Surg. 1988; 95:868-75.
- 8. Chen AW, Wu SL, Cheng WL, Chuang CS, Chen CH, Chen MK, et al. Dysphagia with fatal choking in oculopharyngeal muscular dystrophy: Case report. Medicine. 2018;97(43):e12935.
- 9. Urrútia G, Bonfill X. Declaración PRISMA: una propuesta para mejorar la publicación de revisiones sistemáticas y metaanáli-sis. Med Clínica. 2010;135:507-11.

- 10. Maeda MY, Hashimoto TY, Oliveira IC, Neves LR. Oculopharyngeal muscular dystrophy or oculopharyngeal distal myopathy. Braz J Otorhinolaryngol. 2017;83(2):235-8.
- 11. Gómez-Torres A, Abrante A, Rivas E, Menoyo A, Tirado I, Esteban F. Miotomía del cricofaríngeo en el tratamiento de la distrofia muscular oculofaríngea. Act Otol Esp. 2012;63(6):465-9.
- 12. Fradet G, Pouliot D, Robichaud R, St-Pierre S, Bouchard JP. Upper esophageal sphincter myotomy in oculopharyngeal muscular dystrophy: long-term clinical results. Neuromuscul Disord. 1997;7:S90-5.
- 13. Périé S, Eymard B, Laccourreye L, Chaussade S, Fardeau M, St Guily JL. Dysphagia in oculopharyngeal muscular dystrophy: a series of 22 French cases. Neuromuscul Disord. 1997;7:S96-9.
- 14. St Guily JL, Périé S, Willig TN, Chaussade S, Eymard B, Angelard B. Swallowing disorders in muscular diseases: functional assessment and indications of cricopharyngeal myotomy. Ear Nose Throat J. 1994;73(1):34-40.
- 15. Duranceau A, Forand MD, Fauteux JP. Surgery in oculopharyngeal muscular dystrophy. Am J Surg. 1980;139(1):33-9.
- 16. Manjaly JG, Vaughan-Shaw PG, Dale OT, Tyler S, Corlett JC, Frost RA. Cricopharyngeal dilatation for the long-term treatment of dysphagia in oculopharyngeal muscular dystrophy. Dysphagia. 2012;27(2):216-20.
- 17. Pera M, Yamada A, Hiebert C, Duranceau A. Sleeve recording of upper esophageal sphincter resting pressures during cricopharyngeal myotomy. Ann Surg. 1997;225:229-34.
- 18. Kocdor P, Siegel ER, Tulunay-Ugur OE. Cricopharyngeal dysfunction: a systematic review comparing outcomes of dilatation, botulinum toxin injection, and myotomy. Laryngoscope 2016;126:135-41.
- 19. Munitiz V, Ortiz A, Martinez de Haro LF, Glover G, Ferri B, Montoya M, et al. Diagnosis and treatment of oculopharyngeal dystrophy: a report of three cases from the same family. Dis Esophagus. 2003;16(2):160-4.
- 20. Schneider I, Thumfart W, Eckel HE. Trearment of dysfunction of the cricopharyngeal muscle with botulinum toxin: introduction of a new,

[275]

SANZ-SÁNCHEZ C I ET AL.

- noninvasive method. Ann Otol Rhinol Laryngol. 1994;103:31-5.
- 21. Blitzer A, Brin MF. Use of botulinum toxin for diagnosis and management of cricopharyngeal achalasia. Otolaryngol Head Neck Surg. 1997;116:328-30.
- 22. Restivo DA, Marchese-Ragona R. Safety of botulinum toxin for dysphagia in oculopharyngeal muscular dystrophy. Muscle Nerve. 2014;50(5):869-70.

[276]

CUERPO EXTRAÑO EN SENO FRONTAL. CASO CLÍNICO

Foreign body in frontal sinus. Case report

Mahomed Sidique Abdul Cadar DADÁ¹, Abdul Habib Mahomed DADÁ²

¹Servicio de Anatomía Humana. Facultad de Medicina. Universidad Eduardo Mondlane. Maputo. Mozambique.

²ISCTEM (Instituto Superior de Ciências e Tecnologia de Moçambique). Mozambique.

Correspondencia: motiar786@gmail.com

Fecha de recepción: 5 de enero de 2021 Fecha de aceptación: 5 de febrero de 2021 Fecha de publicación: 7 de febrero de 2021

Fecha de publicación del fascículo: 1 de septiembre 2021

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: El uso de baterías de tipo botón es común en la actualidad, utilizada en objetos cotidianos como relojes, audífonos y juguetes. Sus productos químicos conducen a lesiones graves. Caso clínico: Este artículo describe el caso de un niño de 10 años que arrojó una pila de batería al fuego con explosión y traumatismo por fragmentos en la cara y senos paranasales, que evolucionaron hacia osteomielitis. El niño se sometió a varios drenajes de absceso que finalmente condujeron a la detección de una sinusitis frontal de causa traumática, que fue operado y evolucionó bien. Conclusiones: La sinusitis frontal no es frecuente en los niños y, por lo tanto, es suponer que hay algún cuerpo extraño presente cada vez que hay antecedentes de trauma.

PALABRAS CLAVE: cuerpo extraño; senos paranasales

SUMMARY: The use of button batteries are commonly used today, used in everyday objects such as watches, hearing aids and toys. Its chemicals lead to serious injury. Clinical case: This article describes the case of a 10-year-old boy who threw a battery stack into the fire with explosion and trauma from fragments to the face and paranasal breasts, which evolved into osteomyelitis. The boy underwent several abscess drains that eventually led to the detection of traumatic frontal sinusitis, which was operated on and evolved

[277]

CUERPO EXTRAÑO EN SENO FRONTAL. CASO CLÍNICO DADÁ M S A C Y DADÁ A H M

well. Conclusions: Frontal sinusitis is not common in children and is therefore assumed that there is some foreign body present every time there is a history of trauma.

KEYWORDS: foreign bodies; paranasal sinuses

INTRODUCCIÓN

Los cuerpos extraños en los orificios de la cabeza son frecuentes en los niños [1], sin embargo, los cuerpos extraños alojados en los senos paranasales son muy raros [2].

La mayoría de los casos de cuerpos extraños alojados en los senos son iatrogénicos (60%), seguidos de accidentes industriales (25%). La mayoría de los casos (75%) de cuerpos extraños en los senos se encuentran en el seno maxilar y en el seno frontal (18%) y con menos frecuencia en los senos etmoidales o esfenoidales [3].

Los senos paranasales son extensiones de cavidades nasales llenas de aire y ubicadas dentro del hueso frontal, maxilar, esfenoidal y etmoidal. Tienen el mismo nombre de los huesos y hacen que el cráneo sea más ligero, calientan y humedecen el aire inspirado, y agregan resonancia a la voz [4].

Los senos no están desarrollados, o incluso ausentes al momento del nacimiento. Se expanden rápidamente durante las edades de 6-7 años, el tiempo de erupción de los dientes permanentes y luego después de la pubertad [4].

Las celdas etmoidales son 8 a 10 cavidades llenas de aire que se abren en el meato nasal y se dividen en dos grupos: anterior y posterior. Normalmente hay cinco celdas etmoidales anteriores que se extienden en diferentes huesos: etmoides, frontales, lagrimales y maxilares. Una de estas celdas, que se encuentra en el grosor del hueso frontal, muestra una gran expansión y forma el seno frontal que, a partir de los 15 años de edad, se extiende entre la porción escamosa y orbitonasal del hueso frontal y se desarrolla entre las láminas externa e interna [5]. Tiene una capacidad de 4 a 7 ml; Los dos senos no son simétricos y la diferencia entre ellos es a menudo significativa. Pueden

estar ausentes unilateral o bilateralmente (aplasia del seno frontal en 3-5%). Drena en las cavidades nasales a través del canal nasofrontal que tiene una vía sinuoso y se abre en el meato medio [6]

CASO CLINICO

Varón de 10 años, que nueve meses antes sufrió un accidente traumático como consecuencia de la explosión de una batería tipo botón que había arrojado al fuego tras la que algunos fragmentos le golpearon en la cara. Fue ingresado durante una semana por quemaduras corneales, conjuntivas y heridas faciales tratado con penicilina procaína, pomada oftálmica de tetraciclina, indometacina e higiene ocular regular. El cuadro clínico mejoró y fue dado de alta.

Cuatro meses después ingresó por absceso de la región frontal y la región intraorbital. Se realizó drenaje quirúrgico con mejoría y dado de alta.

El niño tuvo reingresos sucesivos en el hospital local por abscesos en la región frontal y se sometió a drenaje con mejoría y alta. Sin embargo, terminó desarrollando una fístula en la pared anterior del seno frontal con un área inflamada redondeada de 2.5 cm de diámetro ubicada en la región frontal con una fístula central, de consistencia dura, sin fluctuaciones y sin signos de inflamación y dos fístulas laterales cercanas al ángulo interno de los ojos. Cicatriz en la piel al nivel de la sutura nasofrontal y un aumento en la distancia entre las órbitas (hipertelorismo ocular) de aproximadamente 5 cm. El resto del examen de cabeza y cuello no encontró ninguna anormalidad que valga la pena mencionar.

Se realizó TC nasosinusal (Figura 1), que reveló la opacificación de los senos frontales a pesar de ser rudimentario para la edad, con la opacificación concomitante de los recesos frontales del etmoides,

CUERPO EXTRAÑO EN SENO FRONTAL. CASO CLÍNICO DADÁ M S A C Y DADÁ A H M

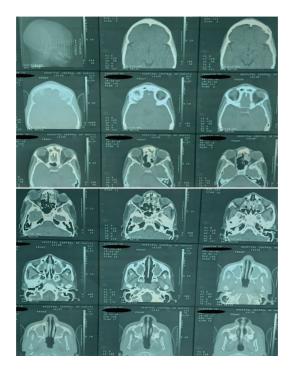


Figura 1. Serie de TC.

de las celdas etmoidales anteriores bilateralmente y los dos senos maxilares.

El hueso frontal adyacente a los senos paranasales tenía hiperostosis, con osteomielitis crónica, con una pequeña solución de continuidad ósea mediana que comunicaba los tejidos cutáneos con el seno frontal izquierdo, de tipo fistuloso, y también había engrosamiento de los tejidos blandos adyacentes de acuerdo con la sinusopatía esclerosante crónica, sin signos de posible afección intracraneal o intraorbitaria.

Se realizó sinusectomía frontoetmoidal externa, que permitió observar osteomielitis fistulizada de la placa externa del hueso frontal con fibrosis intensa de la sutura nasofrontal y parte posterior de la nariz con exposición de la mucosa del seno frontal izquierdo y abundante pus. Se realizó limpieza de los senos frontales y etmoidales además de restablecimiento del drenaje del canal nasofrontal y fue tratado con ampicilina, metronidazol e hidrocortisona inyectada y aplicación de hielo en la cara y estando en posición semisentada. El postoperatorio transcurrió sin incidentes. El tratamiento quirúrgico y de medicamentos dio como resultado una mejoría completa y se dio de alta al tercer día.

El examen anatomopatológico de la mucosa del seno frontal reveló tejido fibroconjuntivo con infiltrado inflamatorio eosinofílico predominantemente mononuclear exuberante y células gigantes de cuerpo extraño y microabscesos. La búsqueda de microorganismos fue negativa, concluyendo que se trataba de un proceso inflamatorio crónico con signos de actividad asociados con la probable presencia de un cuerpo extraño.

DISCUSIÓN

El objetivo de este trabajo es llamar la atención de médicos generales, cirujanos generales y otorrinolaringólogos que la sinusitis crónica en un niño puede ser causada por la presencia de un cuerpo extraño o como en este caso, por fragmentos causados por la explosión de batería tipo botón, un objeto de uso cada vez mayor en juguetes para niños.

Los síntomas de la infección sinusal crónica pueden deberse a un bloqueo del drenaje y al proceso inflamatorio de reacción a un cuerpo extraño, especialmente en presencia de objetos orgánicos [7].

En el caso clínico descrito anteriormente, no se encontraron cuerpos extraños en el seno frontal, probablemente debido a los numerosos drenajes realizados durante el curso de la enfermedad en el hospital de origen y estos procedimientos deben haber eliminado los fragmentos de cuerpos extraños. Es importante eliminar todos los fragmentos de cuerpos extraños para tratar las recurrencias de la osteomielitis frontal. De lo contrario, el proceso inflamatorio persistirá debido a la presencia continua del mismo en los tejidos de los senos frontales.

[279]

CUERPO EXTRAÑO EN SENO FRONTAL. CASO CLÍNICO DADÁ M S A C Y DADÁ A H M

La presencia de baterías tipo botón en las cavidades naturales de la cabeza y el cuello ya representa un problema en los servicios de otorrinolaringología en todo el mundo, pero en Mozambique, todavía es raro. Sin embargo, ya hay casos de niños con antecedentes de ingerir baterías y colocarlas en el oído y las cavidades nasales. Cabe señalar, debido a la introducción de tecnología en las zonas rurales.

Embriológicamente, el seno frontal se considera una célula etmoidal que migró entre las tablas externas e internas del hueso frontal y el canal nasofrontal está rodeado de células etmoidales, y por lo tanto, es muy raro tener una infección crónica aislada del seno sin la afectación infecciosa del etmoides anterior. Debido al grosor relativamente delgado de las paredes óseas y sus relaciones anatómicas de proximidad a las cavidades craneal y orbitaria, las infecciones crónicas en las células frontoetmoidales pueden producir complicaciones orbitarias o craneales [8].

La retención de las secreciones sinusales pueden provocar una reacción inflamatoria en los tejidos blandos perisinusales, con la instalación de procesos osteíticos localizados y la fistulización crónica en la porción interna de la órbita, que es el punto de mayor pendiente del seno frontal. Estas fístulas, que son muy raras hoy en día con el advenimiento de los antibióticos, se pueden ubicar en el tercio medio o externo de la región superciliar, debido a la presencia de tabiques óseos que separan incompletamente el seno frontal [8]

CONCLUSIONES

El caso clínico presentado aquí es algo inusual debido a su etiopatogenia y al hecho de que la sinusitis frontal es bastante rara en niños. El caso se presenta específicamente para alertar a los médicos sobre la necesidad de explorar la etiopatogenia traumática. Por otro lado, en casos con antecedentes de trauma con afección facial, siempre se debe sospechar la presencia de un cuerpo extraño.

BIBLIOGRAFÍA

- Heim S, Maughan K. Foreign bodies in the ear, nose, and throat. Am Fam Physician. 2007;76(8):1185-9.
- 2. Payne BF. Case reports Foreign bodies in the frontal sinus. Br J Radial. 1967; 40.
- Krause HR, Rustemeyer J, Grunert RR. Foreign body in paranasal sinuses. Mund- Kiefer- und Gesichtschirurgie. 2002;6(1):40-4. Disponible en: https:// www.researchgate.net/publication/11393536 _Foreign_body_in_paranasal_sinuses
- Krishna Garg K, PS M, Chandrupatla M. BD Chaurasia's. Human Anatomy. Regional and Applied Dissection and Clinical. Head and Neck. Vol. 3. New Deli: Publisher & Distribuitors Pvt Ltd; 2016.
- Rouviere H, Delmas A, Delmas V. Anatomia Humana Descriptiva, Topografica y Funcional Cabeza y Cuello. 11th ed. Vol. 1. Barcelona: Masson: 2005.
- Becker, W, Nauman, H, Pfaltz C. Otorrinolaringologia. Manual ilustrado. Madrid: Mosby/ Doyma Libros; 1986. 406 p.
- Samaha M, Manoukian JJ, Arthurs B. Sino-orbital foreign body in a child. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2000;52(2):189-92.
- Hungria H. Otorrinolaringologia. 7th ed. Guanabara Koogan, editor. Rio de Janeiro; 1995.

[280]