

Fístula de oído medio: presentación de un caso

Fistula of the middle ear: a case report

Dr.C. Jorge Santana Álvarez ^I; Dr. Gaspar Quesada Rodríguez ^{II}; Dr. Manuel León Molina ^{II}; MSc. María de los Ángeles Miranda Ramos ^{III}; Dr. José Montejo Montejo ^{II}; Isabel del Barrio Taupier ^I

I Hospital Militar Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja. Universidad de Ciencias Médicas. Camagüey, Cuba.

II Hospital Pediátrico Universitario Dr. Eduardo Agramante Piña. Universidad de Ciencias Médicas. Camagüey, Cuba.

III Universidad de Camagüey. Facultad Manuel Fajardo. Universidad de Camagüey, Cuba.

RESUMEN

Fundamento: las fístulas de líquido cefalorraquídeo en el oído son multicausales. Las translaberínticas están asociadas a causas congénitas en el 95 % de los pacientes. La otollicuorrea espontánea es consecuencia de un defecto dural que causa una anormal comunicación entre el espacio subaracnoideo y las cavidades neumatizadas del hueso temporal. Dicha comunicación constituye una vía de entrada de gérmenes patógenos y una posibilidad de desarrollar una infección del sistema nervioso central. Esta complicación grave puede comprometer la vida del enfermo. El riesgo de meningitis en pacientes con fístula de líquido cefalorraquídeo varía hasta un 50 %.

Objetivo: describir el caso de una paciente con fistula congénita y cuadros reiterados de meningoencefalitis

Caso clínico: paciente femenina de nueve años de edad con fistula congénita que había presentado 25 cuadros de meningoencefalitis. En la operación se utilizó tejido autólogo en múltiples capas unidas con Tisuacryl®. Se realizó el cierre vestibular de la fístula lo que previno la recurrencia de meningoencefalitis. La paciente tuvo una evolución satisfactoria después de la cirugía.

Conclusiones: el diagnóstico precoz mediante una correcta exploración física, la confirmación por el laboratorio de la naturaleza del líquido y una prueba de imagen que corroboró la sospecha clínica, así como el cierre combinado de la fístula con material autólogo constituyeron la secuencia diagnóstico-terapéutica idónea, que garantizó el éxito en la paciente.

DeCS: FÍSTULA; MENINGOENCEFALITIS; OÍDO MEDIO; TRASPLANTE AUTÓLOGO; NIÑO.

ABSTRACT

Background: fistulas of cephalospinal liquid in the ear have many causes. Translabyrinthine fistulae are associated with congenital causes in the 95 % of the patients. Spontaneous otorrhea fistulae are consequence of a dural defect that causes an abnormal communication between the subarachnoid space and pneumatized cavities of the temporal bone. This abnormal communication is the access of pathogenic germs and can cause an infection in the central nervous system. This serious complication can compromise the life of the patient. The risk of meningitis in patients with fistulae of the cephalospinal liquid is about a 50 %.

Objective: to describe the case of a female patient with a congenital fistula and repeated manifestations of meningoencephalitis.

Clinical case: a nine-year-old female patient with a congenital fistula who had presented manifestations of meningoencephalitis 25 times. The surgery was conducted using autologous tissue placed in multiple layers linked with Tisuacryl®. A vestibular closure of the fistula was performed preventing the recurrence of meningoencephalitis. The patient had a favorable progress after the operation.

Conclusion: the early diagnosis through a correct physical examination, the confirmation of the nature of the liquid by the laboratory, the imaging test that confirmed the clinical suspicion, and the combined closure of the fistula with autologous tissue constituted the right diagnostic-therapeutic sequence that guaranteed the success in this patient.

DeCS: FISTULA; MENINGOENCEPHALITIS; EAR, MIDDLE; TRANSPLANTATION, AUTOLOGOUS; CHILD.

INTRODUCCIÓN

Las fístulas de líquido cefalorraquídeo (FLCR) en el oído, se producen por una comunicación anormal entre el espacio subaracnoideo y el tímpanomastoideo. El 90 % son de causa traumática y del 4 al 50 % de los enfermos los enfermos hacen meningoendefalitis relacionada con esta causa. Pueden responder a otras

causas: encefaloceles y meningoencefaloceles congénitos (20 % de meningoencefaloceles), la fisura de Hyrtl, la fistulización del canal de Falopio y el defecto en la fisura petromastoidea. Sin embargo, las translaberínticas son el tipo de fístula más relacionado con la causa congénita (95 %).¹⁻³

Existen dos hipótesis sobre la génesis de este tipo de fístulas: la primera habla a favor de una comunicación anormal en el oído interno por un defecto en la lámina cribosa en la pared medial y lateral del vestíbulo y la segunda está a favor de una comunicación anormal oído medio-interno, donde un defecto central a nivel de la platina del estribo sería la causa más frecuente. Las fístulas congénitas tienen una edad media de presentación de cuatro años. La clínica más frecuente de presentación, es en forma de meningoencefalitis recurrente (92 %) o sordera neurosensorial (86 %). Están asociados a distintos cuadros malformativos, donde predomina la deformidad de Mondini o bien, aparecerán de forma idiopática.

El hallazgo de sordera en un paciente con meningoencefalitis recurrente, constituye una pista diagnóstica de fístula en el oído y puede ir acompañada además de abombamiento de la membrana timpánica, rinorrea u otorrea en la exploración otoscópica;¹ aunque estos dos últimos signos están presentes raramente en niños.^{4, 5}

La otoliquorrea espontánea es consecuencia de un defecto dural que causa una anormal comunicación entre el espacio subaracnoideo y las cavidades neumatizadas del hueso temporal. Dicha comunicación constituye una vía de entrada de gérmenes patógenos y la posibilidad de desarrollar una infección del sistema nervioso central, entre un cuatro hasta un 50 % de los enfermos.

El porcentaje de éxito de un cierre multicapa con materiales autólogos llega al 81 %, frente al 50 % si se usan sólo materiales artificiales. Entre ellos cabría destacar: la cera de hueso, Gelfoam, Oxycel, Duragen, la pasta de hueso autólogo o los más

recientes cementos de hueso. La combinación de materiales aumenta la probabilidad de éxito al 100 % de los casos.^{5, 6} El objetivo de la investigación es presentar un caso de una niña con cuadros reiterados de meningoencefalitis aguda bacteriana, por fístula translaberíntica congénita, la utilización de cierre multicapa y el uso con éxito por primera vez de Tisuacryl[®] de producción nacional, en esta técnica quirúrgica.

CASO CLÍNICO

Paciente de nueve años de edad, procedencia rural, que según se recoge por información de la madre; comenzó con infecciones respiratorias agudas a los 11 meses, con ingresos reiterados en la Unidad de Cuidados Intensivos (UCI) del Hospital Pediátrico Universitario Eduardo Agramonte Piña, de la provincia de Camagüey y necesidad de ventilación asistida, hasta los dos años de edad. En agosto de 2007 es ingresada en la UCI por una sepsis respiratoria aguda, donde comienza a manifestar fiebre elevada, taquicardia, convulsiones, rigidez de nuca, en la punción lumbar aparecen 1 456 células, se interpreta como una meningoencefalitis aguda bacteriana (MAB). En medio de un cuadro de shock séptico y al estar ventilada, aparece una leucorrea por fosa nasal izquierda.

En enero de 2011, después del duodécimo cuadro de MAB, hace un cuadro bronconeumónico y se complica con una bronquiectasia izquierda. Es trasladada al Hospital William Soler donde después de cuatro meses de ingreso, se le realiza revisión endoscópica y se le diagnostica una fístula de oído medio; se refiere al hospital Hermanos Ameijeiras, donde se estudia; se realiza cierre de la fístula donde se utiliza fascia temporal en noviembre del 2011 en el hospital Ciro García, de La Habana. A los seis meses del posoperatorio recidiva la liquorrea por la fosa nasal izquierda. Se considera una reintervención y después de 12 cuadros más de MEB, se refiere en febrero de 2013, al Hospital

Militar Dr. Octavio de Concepción y de la Pedraja, de la provincia de Camagüey.

Al examen físico mostró, perforación mesotimpánica y otoliquorrea del oído izquierdo. En la audiometría: hipoacusia conductiva de 30 db, la tomografía computarizada (TC) y la imagen de resonancia magnética (IRM), mostraban las celdas mastoideas ocupadas y presencia de contraste en la trompa de Eustaquio izquierda. El 20 de marzo del 2013, ingresa en el Hospital Pediátrico Universitario Eduardo Agramante Piña para tratamiento quirúrgico. Se realiza timpanostomía explorada, mediante abordaje transmastoideo izquierdo, se observa salida de líquido transparente procedente del vestíbulo, a través de una fístula entre el nervio facial y la platina del estribo; los estudios de laboratorio corroboran la presencia de LCR. Se realiza el cierre de la fístula con fascia temporal, pericondrio y cartílago de la concha, este proceder detuvo la salida de líquido durante 20 minutos bajo visión. A pesar de orientarse la sedación mantenida y el control de la presión del LCR, mediante evacuación diaria, hace crisis de llanto y excitación, lo que provocó a las 72 horas, liquorrea recidivante en fosa nasal izquierda. A los cuatro días comienza con cefalea, vómitos y rigidez de nuca además de mostrar un líquido cefalorraquídeo compatible con MAB, todo esto motivó el traslado a la UCI para tratamiento médico de urgencia (figuras 1, 2 y 3).

Se planifica intervención quirúrgica en junio del 2013, pero un nuevo ingreso por meningoencefalitis bacteriana lo contraindica; se decide mantener ingreso bajo condiciones especiales de aislamiento, hasta la reintervención. El 15 de diciembre del 2013 se realiza mastoidectomía izquierda. Durante el acto quirúrgico se observó salida de líquido cefalorraquídeo por detrás de la platina del estribo, se eliminan granulomas a nivel del antiguo sitio receptor en la caja del tímpano, se retira la mucosa alrededor de la fístula, se cierra fístula con técnica multicapa; se usan materiales artificiales en

combinación con múltiples capas de tejido autólogo: cera hemostática, fascia temporal, cartílago, Tisuacryl[®], fascia, y se cubre con gelfoam; finalmente drenaje endoaural.

En el posoperatorio inmediato previa discusión colectiva interdisciplinaria entre los especialistas de otorrinolaringología, anestesiología y neurocirugía y en el transoperatorio se realiza punción lumbar y drenaje continuo de líquido cefalorraquídeo, mediante catéter en espacio subaracnoideo, para reducción de la presión; este tratamiento resultó imposible, debido a fibrosis del área por reiteradas punciones para el diagnóstico en el curso de los 21 cuadros de MECB, que hasta la fecha habían motivado los ingresos y tratamiento en la UCI.

En la primera semana la paciente hace manifestaciones de hipertensión endocraneana por edema cerebral, debido al cierre del flujo continuo del LCR durante ocho años con respuesta adecuada al tratamiento. Después de dos años se encuentra asintomático y realiza sus actividades docentes y lúdicas habituales.

Diagnóstico: fístula congénita idiopática con meningoencefalitis recurrentes por defecto de la platina del estribo. Gérmenes aislados con mayor frecuencia en el curso de las MAB: *streptococcus pneumoniae*, *haemophilus influenzae*, *neisseria meningitidis* y el *staphylococcus aureus*.

DISCUSIÓN

El caso que presentan los autores corresponde a una fístula congénita, aseveración que se corrobora, por el debut de las manifestaciones clínicas que mostró la niña caracterizada por: cuadros reiterados de meningoencefalitis.⁷ Esta forma de debut se manifiesta en un 92 % de los enfermos y en pacientes entre los cuatro y cinco años de edad tal y como señala De Paula Vernetta C, et al.¹ El hallazgo de sordera en un paciente con meningitis recurrente, constituye una pista diagnóstica de



Figura 1. Salida de líquido cefalorraquídeo a través del conducto auditivo externo.

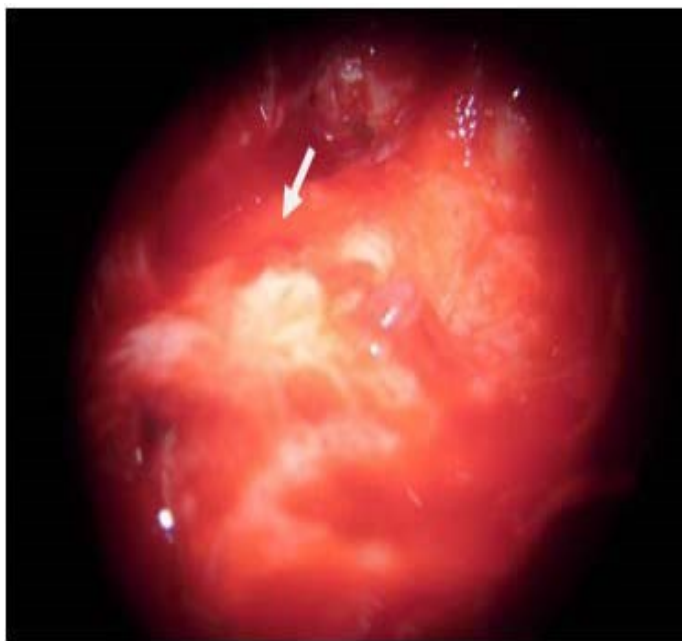


Figura 2. Encima de la ventana oval, orificio redondeado correspondiente a la fístula.

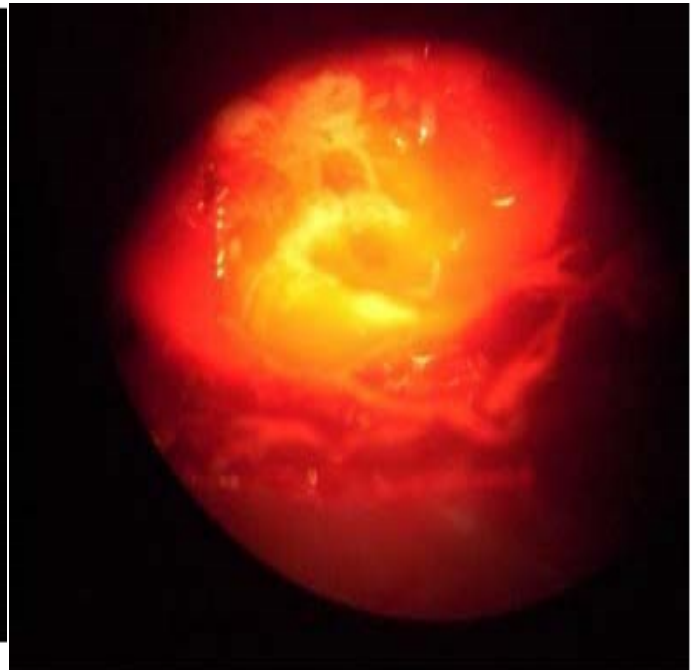


Figura 3. Se observa el empaquetamiento con cartílago, fascia temporal, cera hemostática y Tisuacryl®.

fístula en el oído, aunque no se detectó en este caso y puede ir acompañada además, según Vargas Díaz J, et al, ⁴ de abombamiento de la membrana timpánica, otoliquorrea en la exploración otoscópica o liquorrea a la rinoscopia. Sin embargo, en esta enferma solo se detectó liquorrea a través de la fosa nasal izquierda persistente en correspondencia con el oído enfermo. ⁷⁻¹⁰ La hipoacusia puede aparecer en un 63 - 82 % de pacientes con alteraciones congénitas, este elemento puede ser un orientador en la búsqueda de la causa de la enfermedad.

El riesgo de meningitis en estos casos, va a estar muy relacionado con la causa (no traumático 30 %, quirúrgico 21 % y trauma craneal 3, 5 %). En los niños el riesgo y la gravedad de las complicaciones alcanza una mortalidad de un 50 %, siempre mayor que en los adultos. ^{9, 10} En los trabajos de Wang HS, et al, ¹⁰ y Soult Rubio A, et al, ¹¹ los gérmenes que se hallaron con más frecuencia en pacientes con MAB recurrente fueron: *streptococcus pneumoniae* y *haemophilus influenzae*, *neisseria meningitidis* y menos frecuentes *staphylococcus aureus* y *escherichia coli*. Cuando el microorganismo que se halla de forma repetitiva es el *streptococcus pneumoniae* debe sospecharse la presencia de fístula que relaciona el LCR con las vías respiratorias altas. ¹²

La exploración física brindará el diagnóstico en un 90 % de los casos, ⁸ sin embargo, un nivel de glucosa en LCR superior al 30 % confirmará la sospecha de FLICR. Pueden ser causas de falsos positivos la contaminación con: sangre, saliva, lágrimas o suero en 45 al 75 % de los enfermos por lo que el resultado negativo será de más valor. La beta-2 transferrina como recurso diagnóstico puede estar presente en el LCR, pero también está en concentración importante en la perilinfa y humor vítreo.

El factor más importante para el éxito del tratamiento quirúrgico, en lo que se coincide con C. De Paula Vernetta, et al, ¹ es el uso de una técnica

multicapa con dos o más materiales de soporte, que muestra un éxito cercano al 100 %. Se sugiere que en estos casos, los materiales artificiales sean usados de forma combinada con tejido autólogo. En este caso fue novedoso el uso por primera vez del Tisuacryl® de producción nacional, como adhesivo capaz de formar una capa resistente y de una capacidad adhesiva importante. Para Savva A, et al, ⁸ la fijación con sutura de los materiales utilizados o los pegamentos biológicos (Tissucol®, Surgicel®, Tissue glue, fibrin glue, etc), ¹³⁻¹⁵ no parecen aportar ventajas significativas según su experiencia, sin embargo, por los resultados obtenidos en este caso y por la experiencia de otros autores; no se coincide con este criterio, debido al uso del adhesivo cubano desde que se realizaron los primeros ensayos clínicos, con el que se obtuvieron resultados satisfactorios.

16-18

CONCLUSIONES

La obliteración vestibular de la fístula, previno la recurrencia de los cuadros de meningoencefalitis cuyo riesgo hizo indispensable el diagnóstico precoz, mediante una correcta exploración física, la confirmación en el laboratorio de la naturaleza del líquido y una prueba de imagen que corroboró la sospecha clínica. El cierre combinado de la fístula con material autólogo tomado del área quirúrgica, con la utilización de goma quirúrgica; constituyó la terapéutica idónea que garantizó un 100 % de éxito y la prevención de complicaciones fatales, que con mayor frecuencia se producen en los niños.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Paula Vernetta C De, Ramírez Sabio JB, García Callejo J, Serrano Carañana MN,

- Marco Algarra J. Fístulas de líquido cefalorraquídeo en oído: a propósito de 5 casos. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2005;56:273-9.
2. Vignaud J, Marsot-dupuch K, Pharaboz C, Derosier C, Cordoliani Y. Imaging of the vestibule. *Otolaryngol head neck surg*. 1995;12:36-49.
 3. Nakashimaa T, Sonea M, Teranishia M, TominagaaM, Sugiuraa M, Naganawa S. Imaging of Congenital perilymphatic fistula. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2003;67:421-5.
 4. Vargas Díaz J, Garófalo Gómez N, Rodríguez U, Parra M, Barroso García E, Novoa López L, et al. Displasia de Mondini: meningitis bacteriana recurrente en la adolescencia. *Rev Neurol*. 2004;39(10):935-9.
 5. Rao AK, Merenda DM, Wetmore SJ. Diagnosis and management of spontaneous cerebrospinal fluid otorrhea. *Otology and Neurotology*. 2005;26:1171-5.
 6. Foyt D, Brackmann DE. Cerebrospinal fluid otorrhea through a congenitally patent fallopian canal. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2000;126(4):540-2.
 7. Rupa V, Agarwal I, Rajshekhar V. Congenital perilymph fistula causing recurrent meningitis: lessons learnt from a single-institution case series. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2014 Feb;150(2):285-91.
 8. Savva A, Taylor MJ, Beatty CW. Management of cerebrospinal fluid leaks involving temporal bone: report on 92 patients. *The Laryngoscope*. 2003;113:50-6.
 9. Galbarriatu J, Aurrecoechea E, Ruiz de Gopegui I, Pomposo G, Bilbao S, González I, et al. Otolicuorrea espontánea en el adulto. Presentación de dos casos y revisión de la Literatura. *Neurocirugía*. 2011;22:150-6.
 10. Wang HS, Kuo MF, Huang SC. Diagnostic approach to recurrent bacterial meningitis in children. *Chang Gung Med J*. 2005 Jul;28(7):441-52.
 11. Sault Rubio A, Rangel Pineda C, Muñoz Sáez M, Parrilla Parrilla JS, Díaz Fernández F, López Castilla JD, et al. Meningitis neuromocócica: características epidemiológicas, clínicas y bacteriológicas. *An Esp Pediatr*. Oct 2001;55(4):315-20.
 12. Galbarriatu L, Aurrecoechea J, Ruiz de Gopegui E, Pomposo I, Bilbao G, González S, et al. Otolicuorrea espontánea en el adulto: Presentación de dos casos y revisión de la literatura. *Neurocirugía [Internet]*. Abr 2011 [citado 20 May 2015];22(2):[aprox. 6 p.]. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1130-14732011000200006&lng=es
 13. Kuhweide R, Casselman JW. Spontaneous cerebrospinal fluid otorrhea from a tegmen defect: transmastoid repair with minicraniotomy. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1999;108:653-8.
 14. Kwartler JA, Schulder M, Baredes S, Chandrasekhar SS. Endoscopic closure of the eustachian tube for repair of cerebrospinal fluid leak. *Am J Otol*. 1996;17(3):470-2.
 15. Urata S, Kashio A, Sakamoto T, Kakigi A, Yamasoba T. Novel repair of stapedial footplate defect associated with recurrent meningitis. *Otol Neurotol*. 2014 Oct;35(9):1592-5.
 16. Markou K, Rachovitsas D, Veros K, Tsiropoulos G, Tsalighopoulos M, Psillas G. Perilymphatic fistula of the round window after

whiplash injury: another cause of inner ear conductive hearing loss. Am J Otolaryngol. 2014 Nov-Dec;35(6):822-5.

17. Yamauchi D, Yamazaki M, Ohta J, Kadowaki S, Nomura K, Hidaka H, et al. Closure technique for labyrinthine fistula by "underwater" endoscopic ear surgery. Laryngoscope. 2014 Nov;124(11):2616-8.
18. Magliulo G, Iannella G, Ciniglio Appiani M, Re M. Subtotal petrosectomy and cerebrospinal fluid leakage in unilateral anacusis. J Neurol Surg B Skull Base. 2014 Dec;75(6):391-6.

Recibido: 12 de noviembre de 2015

Aprobado: 10 de diciembre de 2015

Dr.C. Jorge Santana Álvarez. Doctor en Ciencias. Especialista II Grado en Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello. Profesor Titular. Investigador Titular. Hospital Militar Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja. Universidad de Ciencias Médicas de Camagüey. Camagüey, Cuba. Email: jorsan@finlay.cmw.sld.cu