Fístula retroauricular complicada asociada a disgenesia mayor del oído externo. Reporte de un caso

Complicated retroauricular fistula with external ear major dysgenesis. A case report

Dra. Elena Arias^a, Dra. Mariana Juchli^a, Dra. Lucía Fernández^a, Dra. Zaida Ramírez^a y Dra. Roxana Spini^a

RESUMEN

Las anomalías de las hendiduras y arcos branquiales son la segunda causa más común de lesiones congénitas de cabeza y cuello en niños. Representan el 8 % de todas las malformaciones congénitas y el 30 % de las de cabeza y cuello. Pueden permanecer asintomáticas o manifestarse como una tumefacción y asociarse a infecciones recurrentes supuradas en la región preauricular, subauricular o retroauricular, en las regiones de la parótida y/o del cuello. Fueron reportados casos asociados a malformaciones óticas.

La tomografía computada de alta resolución y la resonancia magnética con gadolinio pueden ayudar al diagnóstico. El tratamiento médico antibiótico está indicado ante una infección aguda, además de incisión y drenaje en los procesos abscedados. El tratamiento definitivo es quirúrgico con la extirpación completa de la lesión. Se presenta a un niño de 6 años de edad con infección aguda en la región retroauricular derecha en el oído disgenésico.

Palabras clave: región branquial, anomalías, niño, fístula, cirugía.

ABSTRACT

Branchial cleft anomalies are the second most common congenital head and neck lesions in children. The first congenital head and neck lesion is thyroglossal duct cysts. First branchial cleft anomalies are rare congenital head and neck malformations (8 % of branchial cleft anomalies).

The initial clinical manifestation was recurrent infections and/or discharge in auricular, periauricular, parotid or upper neck regions. These anomalies are extremely rare and other associated facial malformations were described.

The computed tomography and magnetic resonance can help the diagnosis. The antibiotic treatment is indicated in acute infection. Also, incision and drainage are recommended in abscessed processes.

In this report, we present a case of retroauricular sinus infection in a 6-year-old child with congenital ear anomalies.

Key words: branchial region, anomalies, child, fistula, surgery.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e269>

Cómo citar: Arias E, Juchli M, Fernández L, Ramírez Z, Spini R. Fístula retroauricular complicada asociada a disgenesia mayor del oído externo. Reporte de un caso. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(3):e269-e272.

INTRODUCCIÓN

Las anomalías de hendiduras y arcos branquiales (AHAB) son la segunda causa más frecuente de anomalías congénitas de cabeza y cuello después del quiste tirogloso.^{1,2} Son el resultado de remanentes branquiales obliterados en forma incompleta o de la persistencia de restos celulares epiteliales. El 90-95 % se originan en el segundo arco branquial; el 8 %, en el primero, y el 2 %, en el tercero.¹

Work propuso, en 1972, una clasificación sobre la base de los hallazgos anatómicos e histológicos.³ Tipo I: Origen ectodérmico (epitelio escamoso). Se lo considera una duplicación anómala del conducto auditivo externo (CAE) membranoso. Se sitúa en posición anteroinferior al pabellón auricular y superficial al nervio facial. Viaja paralelamente al CAE y termina en un saco ciego en el conducto o en el mesotímpano. Tipo II: Origen ectodérmico y mesodérmico. Se lo considera una duplicación del CAE membranoso y cartilaginoso. Usualmente, se localiza como una fístula o quiste preauricular, infraauricular o posauricular, o por debajo del ángulo de la mandíbula. El tracto pasa lateralmente al nervio facial, medial a él o dividiendo el tronco principal del nervio. Puede terminar en posición inferior al CAE en la unión osteocartilaginosa.^{3,4}

En 1980, Olsen y col. propusieron distinguir estas anomalías en *quiste* cuando no presentaban abertura hacia los espacios circundantes,² *seno* cuando el trayecto presentaba una sola abertura y *fístula* cuando el trayecto tenía dos o más aberturas.⁵ Se presenta a un paciente con disgenesia mayor de oído externo (OE) derecho asociado a fístula retroauricular.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 6 años de edad con disgenesia mayor de oído derecho, que consultó

a. División de Otorrinolaringología, Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

Correspondencia:

Dra. Roxana Spini: spiniroxana@intramed.net

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 29-9-2020

Aceptado: 6-11-2020

a la División de Otorrinolaringología por un proceso compatible con celulitis retroauricular homolateral de 25 días de evolución (Figura 1. A), afebril. Había recibido distintos esquemas antibióticos previos. Se realizó la punción de la lesión y se obtuvo escaso material serohemático. En el examen microbiológico, desarrolló *Proteus mirabilis* y, en la histología, se observaron hallazgos compatibles con un proceso inflamatorio.

Se solicitó una radiografía de tórax y test de Mantoux, ya que uno de los diagnósticos diferenciales debía hacerse con la tuberculosis. Los resultados fueron negativos. La ecografía de la región retroauricular mostró lesión ovoidea, hipoeoica, heterogénea, de contenido particulado fluctuante ante la maniobra de estrés, que fistulizaba hacia los planos profundos, de 14 x 8 mm de superficie, avascular. Ganglios

FIGURA 1. A. Celulitis retroauricular de 25 días de evolución. Había recibido esquemas antibióticos previos. B. Abordaje quirúrgico: se constató la bolsa y el trayecto fistuloso extendido hasta la punta de la mastoidea. C. Se extrajo en forma completa y se envió a Anatomía Patológica. D. Cinco meses después, presentó edema y eritema con signos de flogosis en la región cicatrizal.

normales. La tomografía computada (TC) (Figura 2) informó un engrosamiento de las partes blandas en la región afectada, sin compromiso óseo. Se inició el tratamiento con 30 mg/kg/día de cefuroxima axetil durante 10 días y 0,1 mg/kg/día de betametasona por vía oral durante 7 días.

Ante la persistencia de la lesión, se decidió el abordaje quirúrgico con la marcación previa con azul de metileno a través del orificio de salida. Se extirpó en forma completa la bolsa y el trayecto fistuloso extendido hasta la punta de la mastoides (Figura 1. B y C). La anatomía patológica informó tejido conectivo reparativo con reacción inflamatoria de tipo granulomatosa, compatible con pared de fístula.

El paciente manifestó intolerancia al material de sutura y requirió curaciones semanales, la extracción de los puntos y la cicatrización por segunda. Cinco meses después de la cirugía, presentó edema y eritema con signos de flogosis en la cicatriz quirúrgica (Figura 1. D). Se volvió a operar quirúrgicamente y se resecó el tejido granulomatoso. En la histología, se observó un proceso inflamatorio granulomatoso crónico con cultivo positivo para *Proteus mirabilis*. El paciente se hallaba sin recidiva luego de un período de 4 años.

DISCUSIÓN

La fístula auricular es una disgenesia del OE originada por el cierre defectuoso de los montículos de His, derivados del primer y segundo arco branquial. Las anomalías de la

primera y segunda hendidura representan el 8 % de todas las anomalías congénitas y el 30 % de las de cabeza y cuello, y se manifiestan como alteraciones en el CAE. Son más frecuentes en el sexo femenino y en la raza negra.^{2,6,7}

Se ubican en la región auricular; la preauricular es la localización más frecuente. Presentan forma tubular, angosta, de longitud variable con trayectos tortuosos. Pueden adherirse al pericondrio, extenderse al interior de la glándula parótida y relacionarse con el nervio facial. Es rara la asociación con otras malformaciones faciales.^{2,8} Clínicamente, puede manifestarse como una tumefacción y presentar infecciones recurrentes, celulitis y abscedarse a la piel que lo cubre u otorrea por fistulización al CAE. Existen también casos reportados con hallazgos de colesteatoma.⁹

Shinn y col., en un estudio retrospectivo sobre 126 pacientes con AHAB, contabilizaron que 27 fueron de la primera hendidura, y 17 de ellos presentaron complicaciones como otitis media, otorrea, y el 14 %, colesteatoma. Los 10 restantes no tuvieron manifestaciones otológicas. Fueron 80 los pacientes con anomalía de la segunda hendidura; de ellos, 3 tuvieron otitis. Solo 19 pacientes tuvieron anomalías de la tercera y cuarta hendiduras. Concluyeron que los niños con anomalía de la primera hendidura tenían mayor posibilidad de desarrollar patología otológica y mayor riesgo de infecciones persistentes, especialmente, si la anomalía se encontraba medial al nervio facial.

El diagnóstico se apoya en el conocimiento de las bases embriológicas, los antecedentes

FIGURA 2. Tomografía computada de peñasco (corte coronal). Se observó el engrosamiento de las partes blandas en la región afectada sin compromiso óseo (flechas blancas)

clínicos y los estudios por imágenes. La TC y la resonancia magnética con gadolinio muestran el trayecto fistuloso y su topografía.¹ La fistulografía es un procedimiento mal tolerado en los niños.¹⁰ El diagnóstico diferencial debe hacerse con quiste y/o fístula branquial, adenitis fistulizada inespecífica secundaria a una infección de piel, otomastoiditis, granuloma de cuerpo extraño, tuberculosis, linfoma.

El tratamiento es quirúrgico. Algunos autores aconsejan inyectar azul de metileno para evidenciar el trayecto de la fístula. Sin embargo, no hay consenso, debido a que la tinta puede filtrarse en los tejidos vecinos y comprometer el área quirúrgica e incluso complicar la identificación del nervio facial.⁷

La recurrencia disminuye con la resección completa en bloque, que incluye el pericondrio o cartílago subyacente en la primera intervención. Es importante tener en cuenta que, en los niños menores de 2 años, la tasa de complicaciones posquirúrgicas es mayor, debido al poco desarrollo de la punta de la mastoides y a la mayor exposición al nervio facial.⁶ Por eso, en estos pacientes, se debe evaluar exhaustivamente el riesgo-beneficio de la cirugía y, en caso de que se trate de una fístula sin complicaciones, es prudente posponer el tratamiento quirúrgico hasta que tengan mayor edad.⁶ ■

Agradecimientos

Al Dr. Sergio Martinolich por sus aportes y contribuciones en el diagnóstico del paciente.

REFERENCIAS

1. Shinn J, Purcell P, Horn D, Sie K, et al. First Branchial Cleft Anomalies: Otologic Manifestations and Treatment Outcomes. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2015; 152(3):506-12.
2. Liu W, Chen M, Hao J, Yang, et al. The treatment for the first branchial cleft anomalies in children. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2017; 274(9):3465-70.
3. Work WP. Newer concepts of first branchial cleft defects. *Laryngoscope*. 1972; 82(9):1581-93.
4. Fierro Ávila F, Rodríguez Bejarano O. Anomalías del aparato Faríngeo. *CIRUPED*. 2012; 2(2):78-93.
5. Olsen KD, Maragos NE, Weiland LH. First branchial cleft anomalies. *Laryngoscope*. 1980; 90(3):423-36.
6. Brown L, Johnston D, Rastatter J, Sweis B, et al. Differences in management outcome for first branchial cleft anomalies: A comparison of infants and toddlers to older children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2019; 122:161-4.
7. Li W, Zhao L, Xu H, Li X. First branchial cleft anomalies in children: experience with 30 cases. *Exp Ther Med*. 2017; 14(1):333-7.
8. Magdy E, Ashram Y. First branchial cleft anomalies: presentation, variability and safe surgical management. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2013; 270(6):1917-25.
9. Banakis Hartl R, Said S, Mann S. Bilateral Ear Canal Cholesteatoma with Underlying Type I First Branchial Cleft Anomalies. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2019; 128(4):360-4.
10. Spinelli C, Rossi L, Piscioneri J, Natale G, et al. Branchial cleft and pouch anomalies in childhood: a report of 50 surgical cases. *J Endocrinol Invest*. 2016; 39(5):529-35.