

Resultados del Implante Coclear en niños que padecieron infección por Citomegalovirus

Results of the Cochlear Implant in children and adolescents with Cytomegalovirus

Resultados do Implante Coclear em crianças e adolescentes com Citomegalovírus

Dr. Daniel De La Torre Diamante ⁽¹⁾, Dra. María Constanza Carmona ⁽²⁾, Dr. Orlando Rodríguez ⁽²⁾, Dr. Alan Gianfranco Nemesio ⁽³⁾, Prof. Vicente Diamante ⁽⁴⁾, Dra. Natalia Rossi ⁽⁵⁾

Resumen

Introducción: La infección por citomegalovirus es la principal causa de hipoacusia congénita no genética, y la segunda causa de pérdida auditiva en niños. La hipoacusia y las patologías asociadas, secundarias al citomegalovirus pueden interferir en el rendimiento del implante coclear y la calidad de vida. **Objetivo:** Evaluar los resultados audiológicos en pacientes con citomegalovirus congénito que recibieron un implante coclear; comparar los resultados audiológicos entre pacientes que presentan o no hándicaps asociados; e identificar la prevalencia de discapacidades asociadas en citomegalovirus.

Material y Método: Estudio retrospectivo descriptivo observacional. Un total de 37 pacientes con hipoacusia neurosensorial secundaria a citomegalovirus, divididos en tres grupos, el primero sin hándicaps o con hándicaps asociados que no afectan el resultado del Implante Coclear, el segundo con hándicaps que sí afectan el resultado del Implante Coclear y un tercer grupo con hipoacusia neurosensorial profunda sin infección por Citomegalovirus (grupo control). Todos los pacientes fueron implantados y se les realizó seguimiento audiológico a los 12 y 24 meses post operatorios en "Centro de Implantes Cocleares Profesor Diamante", Ciudad de Buenos Aires, Argentina, entre los años 1996 y 2018.

Resultados: Los resultados comparativos entre los 3 grupos a los 24 meses post implante coclear: grupo 1: 9% estaban en categoría 1, 9% en categoría 3, 9% en categoría 5 y 73% en categoría 6. Grupo 2: 15%

estaban en categoría 1, 38% en categoría 2, 31% en categoría 3, 8% en categoría 5 y 8% en categoría 6. Grupo 3: 10 % en categoría 5 y 90% en categoría 6. 15 de 37 pacientes (40.54%) presentaron discapacidades asociadas que afectan el resultado del implante coclear.

Conclusión: Existen diferencias en cuanto al resultado audiológico del implante coclear entre los pacientes que presentan hándicaps asociados y los que no, teniendo peores resultados los primeros (aunque con gran mejoría en la calidad de vida). La implantación coclear es beneficiosa en pacientes con hipoacusia por citomegalovirus.

Palabras clave: Citomegalovirus, Hipoacusia, Implante coclear.

Abstract

Introduction: Cytomegalovirus infection is the main cause of non-genetic congenital hearing loss, and the second cause of hearing loss in children. Hearing loss and associated pathologies secondary to cytomegalovirus can interfere with cochlear implant performance and quality of life. **Objective:** To evaluate the audiological results in patients with congenital cytomegalovirus who received a cochlear implant; to compare the audiological results between patients with or without associated handicaps to identify the prevalence of associated disabilities in cytomegalovirus.

Material and Method: Retrospective observational descriptive study. A total of 37 patients with senso-

⁽¹⁾ Medico de planta del servicio de Otología. ⁽²⁾ Residente de 4° año. ⁽³⁾ Residente de 2° año. ⁽⁴⁾ Jefe del Departamento de Otología del Instituto Superior de Otorrinolaringología. Director y Fundador del Centro de Implantes Cocleares Profesor Vicente Diamante

⁽⁵⁾ Audióloga del Centro de Implantes Cocleares Profesor Vicente Diamante. Instituto Superior de Otorrinolaringología (ISO), CABA, Argentina.

Mail de contacto: m.constanza.carmona@gmail.com

Fecha de envío: 20 de Noviembre de 2019 - Fecha de aceptación: 10 de julio de 2020

rineural hearing loss secondary to cytomegalovirus, divided into three groups, the first without handicaps or with associated handicaps that do not affect the outcome of the Cochlear Implant, the second with handicaps that do affect the outcome of the Cochlear Implant, and a third group with profound sensorineural hearing loss without Cytomegalovirus infection (control group). All the patients were implanted and audiological follow-up was performed at 12 and 24 months postoperatively in "Centro de Implantes Cocleares Profesor Diamante", Buenos Aires, Argentina, between 1996 and 2018.

Results: The comparative results between the 3 groups at 24 months post cochlear implant: group 1: 9% were in category 1, 9% in category 3, 9% in category 5 and 73% in category 6. Group 2: 15% were in category 1, 38% in category 2, 31% in category 3, 8% in category 5 and 8% in category 6. Group 3: 10% in category 5 and 90% in category 6. 15 of 37 patients (40.54%) had associated disabilities that affect the outcome of the cochlear implant.

Conclusion: There are differences in terms of audiological results of cochlear implant between patients who present associated handicaps and those who do not, the former having worse results (although with great improvement in quality of life). Cochlear implantation is beneficial in patients with hearing loss due to Cytomegalovirus.

Keywords: Cytomegalovirus, Hearing loss, Cochlear implant.

Resumo

Introdução: A infecção por citomegalovírus é a principal causa de perda auditiva congênita não genética e a segunda causa de perda auditiva em crianças. A perda auditiva e as patologias associadas secundárias ao citomegalovírus podem interferir no desempenho do implante coclear e na qualidade de vida. Objetivo: Avaliar os resultados audiológicos em pacientes com citomegalovírus congênito que receberam implante coclear, comparar os resultados audiológicos entre pacientes com ou sem deficiências associadas e identificar a prevalência de deficiências associadas no citomegalovírus.

Material e Método: Estudo descritivo observacional retrospectivo. Um total de 37 pacientes com perda auditiva neurossensorial secundária ao citomegalovírus, divididos em três grupos, o primeiro sem desvantagens ou desvantagens associadas que não afetam o resultado do implante coclear, o segundo com desvantagens que afetam o resultado do

implante coclear e um terceiro grupo com perda auditiva neurossensorial profunda sem infecção por citomegalovírus (grupo controle); Todos os pacientes foram implantados e o acompanhamento audiológico foi realizado 12 e 24 meses no pós-operatório no "Centro de Implantes Cocleares Profesor Diamante", cidade de Buenos Aires, Argentina, entre 1996 e 2018.

Resultados: Os resultados comparativos entre os três grupos aos 24 meses após o implante coclear: grupo 1: 9% estavam na categoria 1, 9% na categoria 3, 9% na categoria 5 e 73% na categoria 6. Grupo 2: 15% estavam na categoria 1, 38% na categoria 2, 31% na categoria 3, 8% na categoria 5 e 8% na categoria 6. Grupo 3: 10% na categoria 5 e 90% na categoria 6. 15 de 37 pacientes (40,54%) eles tinham deficiências associadas que afetam o resultado do implante coclear.

Conclusão: Existem diferenças quanto ao resultado audiológico do implante coclear entre os pacientes que apresentam desvantagens associadas e os que não apresentam, sendo que os primeiros apresentam piores resultados (embora com grande melhora na qualidade de vida). O implante coclear é benéfico em pacientes com perda auditiva por CMV.

Palavras chave: Citomegalovírus, Perda auditiva, Implante coclear.

Introducción

La infección congénita por citomegalovirus (CMV) es la infección fetal más frecuente, con una alta prevalencia. Es la principal causa de hipoacusia congénita no genética y la segunda causa de hipoacusia en niños. ⁽¹⁾

La infección puede contagiarse en el período prenatal o perinatal a través de la madre, quien adquiere la enfermedad durante el embarazo. En el momento del nacimiento los signos, si están presentes, pueden ser: retraso del crecimiento intrauterino, microcefalia, ictericia, petequias, hepatoesplenomegalia, calcificaciones periventriculares, coriorretinitis, neumonitis, hepatitis e hipoacusia neurossensorial. Si se contagia en etapas más tardías, como la lactancia, los signos pueden consistir en neumonía, hepatoesplenomegalia, hepatitis, trombocitopenia, síndrome séptico y linfocitosis atípica. Los métodos diagnósticos posibles son a través de técnicas indirectas IgM e IgG o técnicas directas como antigemia pp65, cultivo celular SV o ADN cuantificado. ⁽²⁾

La mayoría de los niños infectados son asintomáticos al nacer; de estos aproximadamente el 7 al 25% desarrollan síntomas a lo largo de su infancia.

La pérdida auditiva puede ser progresiva durante la niñez. Esto se refleja en que hasta un tercio de los niños con CMV pasan satisfactoriamente el screening auditivo neonatal. La hipoacusia está presente entre el 15 a 65% de los niños infectados y puede progresar de leve a profunda durante los dos primeros años de vida, periodo crucial para el aprendizaje del lenguaje. Por esto es necesario un control auditivo periódico de estos pacientes durante su niñez. ⁽²⁾

La infección por CMV presenta un amplio espectro de secuelas, entre las cuales encontramos patologías cognitivas, visuales o motrices. Dichas secuelas pueden provocar retraso en el desarrollo neuro-madurativo, déficit intelectual, desordenes del espectro autista, hiperactividad y déficit de atención. La severidad de las secuelas es mayor cuanto más temprano se produzca la infección materna durante la gestación. ⁽³⁻⁵⁾

Considerando todo lo dicho con anterioridad, la pregunta es: ¿Son estos niños capaces de alcanzar el mismo nivel de rendimiento luego de recibir un Implante Coclear (IC) que un niño no infectado por CMV? Existen numerosos estudios que investigan el rendimiento de los niños con CMV luego de la implantación, en la percepción y producción del habla, el entendimiento del lenguaje y los resultados del rendimiento audiológico. ⁽⁵⁻⁷⁾ Nuestro principal objetivo es evaluar los resultados audiológicos en niños con CMV congénito que recibieron IC, comparar los resultados del IC entre pacientes que presentan o no hándicaps asociados, como así también, identificar la prevalencia de discapacidades asociadas en esta muestra de pacientes.

Material y Método

Se realizó un estudio de diseño retrospectivo descriptivo observacional. Los sujetos de estudio son 37 pacientes con hipoacusia neurosensorial con antecedentes de infección por CMV congénito, implantados en el Centro de Implantes Cocleares Profesor Diamante (CIC), en la ciudad de Buenos Aires, Argentina, entre enero de 1996 y diciembre de 2018. Se realizó una revisión de la base de datos, donde se obtuvieron la información demográfica y los resultados audiológicos.

Los resultados audiológicos fueron medidos en base a las categorías de percepción del habla de Geers (Tabla 1) antes de la cirugía, a los 12 meses y a los 24 meses post operatorios.

Todos los sujetos tenían inserción completa de la guía de electrodos, y ninguno presentó complicaciones intraquirúrgicas.

Los pacientes que conformaron la muestra fueron

divididos en tres grupos: el grupo 1, con hipoacusia neurosensorial profunda (HNS) por infección por CMV sin hándicaps o hándicaps asociados que no afectan el resultado del IC. En el grupo 2 se incluyeron a los pacientes con hándicaps asociados que afectan los resultados del IC. Y en el grupo 3, o grupo control, se incluyeron pacientes con hipoacusia neurosensorial profunda sin antecedentes de infección por CMV.

Tabla 1. Categorías de percepción del habla de Geers

Categoría 0 - No detección del habla
Categoría 1 - Detección del habla
Categoría 2 - Percepción de patrones suprasedimentales del habla
Categoría 3 - Comienzo de identificación de palabras con múltiples diferencias espectrales.
Categoría 4 - Identificación de palabras a través del reconocimiento de las vocales en formato cerrado.
Categoría 5 - Identificación de palabras a través del reconocimiento de las consonantes en formato cerrado.
Categoría 6 - Reconocimiento de palabras en formato abierto.

Resultados

Los resultados obtenidos fueron: promedio de edad al momento del implante en todos los pacientes: 4.7 años (rango etario: 1-17 años). Promedio de edad al implante en grupo 1 (n=22 oídos): 6.23 años (rango etario 2-17 años). Promedio de edad al momento del implante en grupo 2 (n=13 oídos): 3.42 años (rango etario 1-8 años). Promedio de edad al implante en el grupo 3 (n=20 oídos) 3.25 años (rango etario 2-7 años).

Los resultados obtenidos de los datos analizados fueron: en el grupo 1, 31 oídos implantados sobre un total de 22 pacientes, de los cuales se incluyeron 22 oídos implantados con resultados audiológicos completos en un seguimiento de 24 meses o más. Los hándicaps encontrados sin afectación del IC fueron: coloboma retinal (n=1), epilepsia (n=1) y hemiparesia derecha (n=1). A los 12 meses post IC dos categoría 1, dos categoría 2, tres categoría 3, cuatro categoría 4, cinco categoría 5 y seis categoría 6 (Gráfico 1). A los 24 meses post IC dos categoría 1, dos categoría 3, dos categoría 5 y dieciséis categoría 6 (Gráfico 2). La media de la escala de Geers en este grupo fue de 4.18 sobre 6 a los 12 meses, y de 5.18 sobre 6 a los 24 meses.

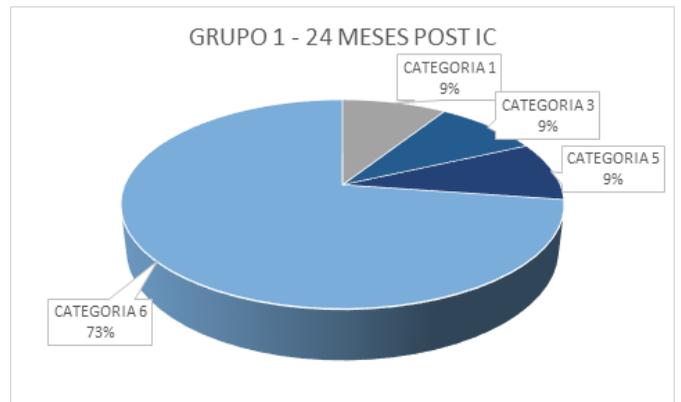
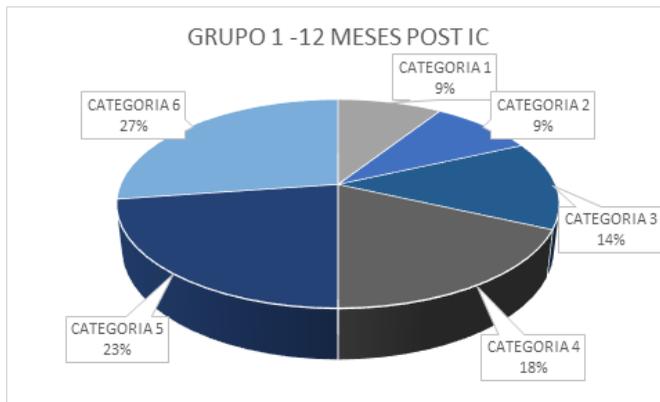


Gráfico 1: Resultados Grupo 1 – 12 meses post Implante Coclear (IC). Gráfico 2: Resultados Grupo 1 – 24 meses post implante coclear (IC).

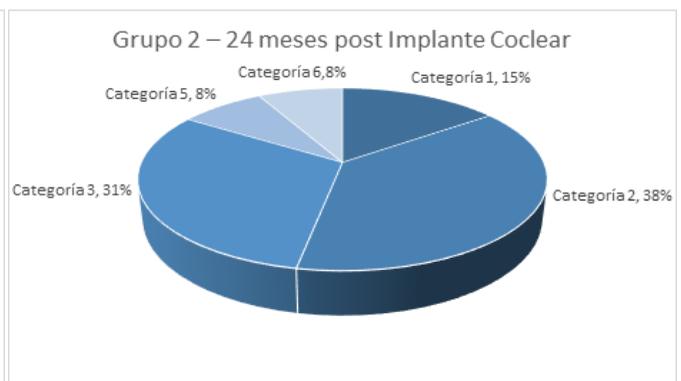
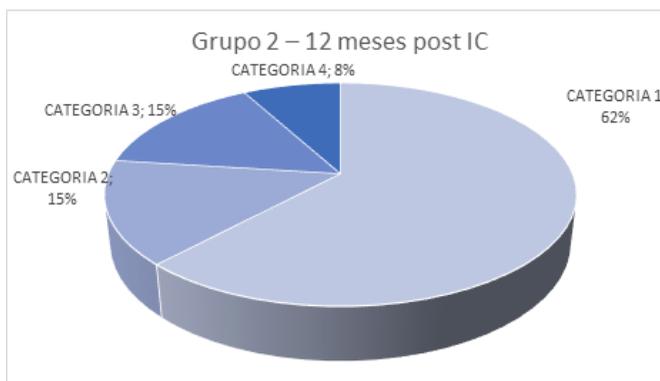


Gráfico 3: Resultados Grupo 2 – 12 meses post Implante Coclear (IC). Gráfico 4: Resultados Grupo 2 – 24 meses post Implante Coclear (IC).

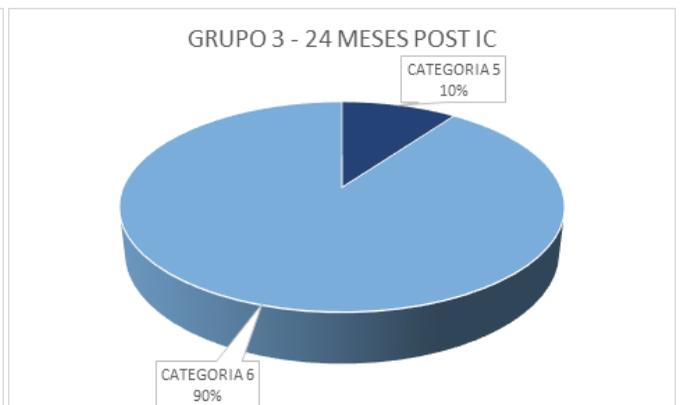
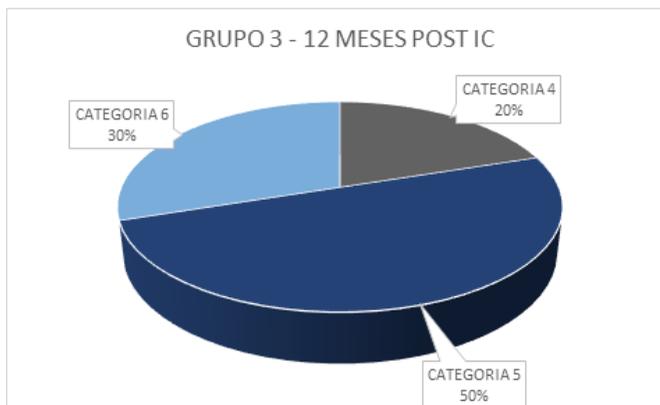


Gráfico 5: Resultados Grupo 3 – 12 meses post Implante Coclear (IC). Gráfico 6: Resultados Grupo 3 – 24 meses post Implante Coclear (IC).

En el grupo 2 (pacientes con hándicaps asociados que afectan el resultado del implante coclear): 23 oídos implantados en 15 pacientes, de los cuales se incluyeron 13 oídos que presentaron resultados audiológicos completos a los 24 meses de seguimiento. En siete pacientes se encontró 2 hándicaps asociados o más (tres pacientes microcefalia y retraso madurativo; un paciente parálisis cerebral y retraso madurativo; un paciente microcefalia y calcificaciones cerebrales; un paciente encefalopatía crónica no evolutiva (ECNE), microcefalia y paraparesia espástica; y un paciente polimicroan-

giopatía, microcefalia y parálisis cerebral. Los hándicaps asociados a la hipoacusia, como único hándicap extra fueron: encefalopatía crónica no evolutiva (ECNE) en tres pacientes; retraso madurativo en tres pacientes, microcefalia en un paciente y desorden del espectro de neuropatía auditiva (DENA) en un paciente. A los 12 meses post IC (Gráfico 3): ocho categoría 1, dos categoría 2, dos categoría 3 y uno en categoría 4. A los 24 meses post IC (Gráfico 4): dos categoría 1, cinco categoría 2, cuatro categoría 3, uno categoría 5 y uno categoría 6. La media de la escala de Geers de este grupo fue de 1.69 sobre 6 a

los 12 meses post IC, y de 2.69 sobre 6 a los 24 meses post IC.

El grupo 3 (grupo control) de pacientes con hipoacusia neurosensorial sin infección por CMV, incluyó 20 oídos implantados en 13 pacientes. A los 12 meses post IC (Gráfico 5): cuatro categoría 4, diez categoría 5 y seis categoría 6. A los 24 meses post IC (Gráfico 6): dos categoría 5 y dieciocho categoría 6. La media de la escala de Geers en este grupo fue de 5.1 sobre 6 a los 12 meses post IC y de 5.9 sobre 6 a los 24 meses post IC.

La comparativa a los 24 meses post IC (Tabla 2); en el grupo 1: 9% estaban en categoría 1, 9% en categoría 3, 9% en categoría 5 y 73% en categoría 6. En el grupo 2: 15% estaban en categoría 1, 38% en categoría 2, 31% en categoría 3, 8% en categoría 5 y un 8% en categoría 6. Dentro del grupo 3: 10 % en categoría 5 y el 90% en categoría 6.

Tabla 2. Resultados comparativos a los 24 meses post implante coclear.

	Grupo 1 (n=22)	Grupo 2 (n=13)	Grupo 3 (n=20)
Categoría 1	9%	15%	0%
Categoría 2	0%	38%	0%
Categoría 3	9%	31%	0%
Categoría 4	0%	0%	0%
Categoría 5	9%	8%	10%
Categoría 6	73%	8%	90%

Del análisis observamos que la mayoría de los pacientes no presentan discapacidades o hándicaps que afectan el resultado del implante coclear, 22 pacientes versus 15 pacientes. Dentro del grupo que presentan discapacidades que condicionan el resultado del implante coclear, en 7 pacientes se encontró 2 hándicaps asociados o más (3 con microcefalia y retraso madurativo; un paciente con parálisis cerebral y retraso madurativo; un paciente microcefalia y calcificaciones cerebrales; un paciente ECNE, microcefalia y paraparesia espástica y un paciente polimicroangiopatía, microcefalia y parálisis cerebral). Los hándicaps encontrados de forma aislada fueron ECNE en 3 pacientes; tres pacientes retraso madurativo, un paciente microcefalia y desorden del espectro de neuropatía auditiva (DENA) en el restante.

Los resultados, en pacientes con hándicaps asociados, muestran una tendencia predictiva de resultados más pobres del habla y del lenguaje que en los pacientes sin hándicaps a los 24 meses de seguimiento. Los resultados pueden ser comparables con el grupo control, pero siendo este último el grupo donde se obtienen la mayoría de pacientes en categoría 6 con reconocimiento de palabras en formato abierto. Existen varios estudios que reportan peores resultados del IC, en niños que presentan

comorbilidades asociadas a la infección congénita por CMV.⁽⁸⁾

Discusión

El objetivo de este trabajo fue evaluar los resultados audiológicos en pacientes con infección por CMV como causa de hipoacusia neurosensorial. Además, evaluamos el efecto de las comorbilidades que afectan el resultado del implante coclear comparado con pacientes que no presentan hándicaps, o si los presentan pero sin alterar el resultado del implante coclear.

La mayoría de los estudios que detectan un rendimiento menor del IC en el grupo con CMV tienen un seguimiento de 2 años post implantación. El bajo rendimiento suele mejorar cuando existe un seguimiento mayor a dos años. Esto puede indicar que la evolución del IC en niños con CMV puede demorarse más de dos años en comparación con los niños implantados sin CMV.^(9,10) A su vez, nos muestra la importancia en el seguimiento de los pacientes, evaluando el desarrollo del habla y del lenguaje. En los pacientes con CMV el seguimiento debe ser prolongado para poder observar resultados comparables con los pacientes que no lo presentan.^(11,12)

Yoshida et al., en un estudio que incluyó 17 pacientes, observaron que la percepción del habla y producción del lenguaje en el grupo con CMV a los 12 meses post IC fue más pobre que el grupo control, pero alcanzaron niveles similares a largo plazo; a pesar de que este estudio que no diferencia si los pacientes con infección por CMV presentan hándicaps asociados.⁽¹³⁾

Los resultados en pacientes con CMV avalan que dicha entidad no es una contraindicación de implante coclear, teniendo un promedio del 50% de performances pobres y 50% comparables con grupos control.⁽¹²⁾ Si bien en los primeros 12 meses la percepción y la producción del lenguaje es más pobre en estos pacientes comparados con grupo control, a partir de los 12 meses logran grandes progresos hasta llegar a una diferencia no tan significativa con grupo control.^(13,14)

En los pacientes con CMV se conoce que existe un desorden central y dificultades del aprendizaje, los cuales influyen el desarrollo del lenguaje y el habla y, por ende, en la rehabilitación post implante. Además, presentan niveles pobres de atención y son considerados más susceptibles a problemas posteriores de aprendizaje, por lo cual se debe prestar especial atención luego de la implantación coclear.⁽¹⁵⁾

Conclusión

La presencia de discapacidades asociadas a hipoacusia neurosensorial en pacientes con infección por CMV predice un resultado audiológico más pobre luego de recibir el implante coclear, en comparación con los pacientes que no presentan hándicaps asociados. Estos resultados no contraindican el IC, sino que nos advierte la importancia de un adecuado asesoramiento pre y post IC, y la necesidad de un seguimiento a largo plazo y de un gran trabajo de rehabilitación en este grupo de pacientes, probablemente mayor que en otros.

En pacientes que no presentan hándicaps asociados o, si presentan hándicaps, que no afecten el rendimiento del implante coclear, se obtienen beneficios comparables con el grupo control.

En nuestra experiencia, si bien en pacientes con CMV y hándicaps asociados el rendimiento del implante coclear es notablemente inferior en comparación con el grupo sin hándicaps asociados, el IC en estos pacientes es la única posibilidad de conexión con el mundo. Si bien los resultados audiológicos no llegan a niveles elevados, el IC es una herramienta que mejora significativamente la calidad de vida de estos niños y sus familias.

Los autores no manifiestan conflictos de interés.

Bibliografía

1. Fukushima K, Sugata K, Kasai N, Fukuda S, Nagayasu R, Toida N, et al. Better speech performance in cochlear implant patients with GJB2-related deafness. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2002; 62:151–7.
2. Iwasaki S, Nakanishi H, Misawa K, Tanigawa T, Mizuta K. Cochlear implant in children with asymptomatic congenital cytomegalovirus infection. *Audiol Neurotol.* 2009; 14:146–52.
3. Edwards LC, Frost R, Witham F. Developmental delay and outcomes in pediatric cochlear implantation: implications for candidacy. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology.* 2006; 70(9):1593–600.
4. Yamazaki H, Yamamoto R, Moroto S, Yamazaki T, Fujiwara K, Nakai M, et al. Cochlear implantation in children with congenital cytomegalovirus infection accompanied by psycho-neurological disorders. *Acta Oto-Laryngologica.* 2012; 132:420–27.
5. Ciorba A, Bovo R, Trevisi P, Bianchini C, Arboretti R, Martini A. Rehabilitation and outcome of severe profound deafness in a group of 16 infants affected by congenital cytomegalovirus infection. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology.* 2009; 266(10):1539–46.
6. Lee DJ, Lustig L, Sampson M, Chinnici J, Niparko JK. Effects of cytomegalovirus (CMV) related deafness on pediatric cochlear implant outcomes. *Otolaryngology—Head and Neck Surgery.* 2005; 133(6):900–05.
7. Meinzen-Derr J, Wiley S, Grether S, Choo DI. Language performance in children with cochlear implants and additional disabilities. *Laryngoscope.* 2010; 120(2):405–13.
8. Dahle AJ, Fowler KB, Wright JD, Boppana SB, Britt WJ, Pass RF. Longitudinal investigation of hearing disorders in children with congenital cytomegalovirus. *Journal of the American Academy of Audiology.* 2000; 11(5):283–90.
9. Saigal S, Lunyk O, Larke RP, Chernesky MA. The outcome in children with congenital cytomegalovirus infection: a longitudinal follow-up study. *Am J Dis Child.* 1982; 136:896–901.
10. Lee DJ, Lustig L, Sampson M, Chinnici J, Niparko JK. Effects of cytomegalovirus related deafness on pediatric cochlear implant outcomes. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2005; 133:900–05.
11. Viccaro M, Filipo R, Bosco E, Nicastrì M, Mancini P. Long term follow up of implanted children with cytomegalovirus-related deafness. *Audiol Neurotol.* 2012; 17:395–9.
12. Ramirez Inscoe JM, Nikolopoulos TP. Cochlear implantation in children deafened by cytomegalovirus: speech perception and speech intelligibility outcomes. *Otol Neurotol.* 2004; 25:479–82.
13. Yoshida H, Kanda Y, Takahashi H, Miyamoto I, Yamamoto T, Kumagami H. Cochlear implantation in children with congenital cytomegalovirus infection. *Otol Neurotol.* 2009; 30:725–30.
14. Matsui T, Ogawa H, Yamada N, Baba Y, Suzuki Y, Nomoto M, et al. Outcome of cochlear implantation in children with congenital cytomegalovirus infection or GJB2 mutation. *Acta Otolaryngol.* 2012; 132:597–602.
15. Malik V, Bruce IA, Broomfield SJ, Henderson L, Green KMJ, Ramsden RT. Outcome of cochlear implantation in asymptomatic congenital cytomegalovirus deafened children. *Laryngoscope.* 2011; 121:1780–4.