

Otología y Neurología

# Diagnóstico y tratamiento de la fístula espontánea del hueso temporal en un centro de tercer nivel: serie de casos y revisión de la literatura

*Diagnosis and treatment of spontaneous temporal bone fistula at a tertiary care center: case series and literature review*

*Diagnóstico e tratamento de fístula espontânea do osso temporal em um centro de terceiro nível: série de casos e revisão da literatura*

Dr. Carlos Ignacio Orrego<sup>(1)</sup>, Dr. Santiago Marinelli<sup>(2)</sup>, Dr. Gabriel Rondón González<sup>(1)</sup>, Dra. Federica Fernandez Long<sup>(2)</sup>, Dra. Redivo Micaela<sup>(2)</sup>, Dra. Gallino Natalia<sup>(2)</sup>, Dr. Federico Alberto Di Lella<sup>(3)</sup>

## Resumen

**Objetivo:** El objetivo de este trabajo es describir la experiencia en el diagnóstico y tratamiento de la fístula espontánea de LCR y realizar una revisión bibliográfica del tema.

**Población:** Pacientes diagnosticados con fístula espontánea de LCR en el hueso temporal tratados en el Servicio de Otorrinolaringología en el Hospital Italiano de Buenos Aires.

**Material y Método:** Se revisaron las historias clínicas electrónicas de los pacientes operados por fístula de LCR del oído entre 2004 y 2023. Se incluyeron todos los pacientes diagnosticados con fístula de LCR del oído espontánea en pacientes mayores de 18 años y se excluyeron aquellos con antecedentes que pudieran causar una fístula secundaria, como traumatismo encefalocraneal, cirugías otológicas o de base del cráneo, otitis media crónica con y sin colesteatoma y tumores.

**Resultados:** Se incluyeron un total de 9 pacientes, de los cuales 3 eran hombres (33.3%) y 6 eran mujeres (66.7%). La edad promedio fue de 67 años, con

un rango de entre 54 y 89 años. El tiempo promedio desde el inicio de los síntomas hasta la reparación quirúrgica fue de 2 años. Teniendo en cuenta la ubicación anatómica, el 33.3% de las fístulas se localizaron solo en la región mastoidea, mientras que el 66.7% afectaba tanto la caja timpánica como la mastoides. Se eligió el abordaje transmastoides en todos los casos. El cierre del defecto se realizó con un mínimo de 3 capas en todos los pacientes. La tasa de éxito fue del 100% en un seguimiento a 6 meses.

**Conclusiones:** La fístula espontánea de LCR es una patología que requiere un diagnóstico preciso y un tratamiento quirúrgico eficiente debido al riesgo de complicaciones. El diagnóstico clínico es difícil debido a la confusión con otras patologías más frecuentes que presentan síntomas similares. El tratamiento quirúrgico se puede llevar a cabo en la mayoría de los casos a través de un abordaje transmastoides asociando una reparación multicapa.

**Palabras clave:** fístula espontánea de hueso temporal, granulaciones aracnoideas, hipoacusia unilateral, líquido cefalorraquídeo, hipoacusia conductiva unilateral.

<sup>(1)</sup> Médico asociado, Servicio de ORL.

<sup>(2)</sup> Médico residente, Servicio de ORL.

<sup>(3)</sup> Jefe de Servicio de ORL, médico de planta.

Servicio de Otorrinolaringología, sector Otología, Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA, Argentina.

Mail de contacto: carlos.orrego@hospitalitaliano.org.ar

Fecha de envío: 30 de mayo de 2024 - Fecha de aceptación: 2 de agosto de 2024.

## Abstract

**Objective:** The objective of this work is to describe our experience in the diagnosis and treatment of spontaneous CSFF and to carry out a bibliographic review of the topic.

**Population:** Patients diagnosed with spontaneous CSF fistula in the temporal bone treated at the Otorhinolaryngology Service at the Italian Hospital.

**Material and Method:** The electronic medical records of patients operated on for ear CSFF between 2004 and 2023 were reviewed. All patients diagnosed with spontaneous ear CSFF in patients over 18 years of age were included, and those with a history of etiologies that could cause a secondary fistula such as encephalocranial trauma, otological or skull base surgeries, chronic otitis media with or without cholesteatoma, and tumors were excluded.

**Results:** A total of 9 patients were included, of which 3 were men (33.3%) and 6 were women (66.7%). The average age was 67 years, with a range between 54 and 89 years. The average time from the onset of symptoms to surgical repair was 2 years. Considering the anatomical location, 3.3% of the fistulas were in the mastoid region only, while 66.7% affected both the tympanic box and the mastoids. The transmastoid approach was chosen in all cases. The defect closure was performed with a minimum of 3 layers in all patients. The success rate was 100% after a six-month follow up.

**Conclusions:** Spontaneous CSF fistula is a pathology that requires an accurate diagnosis and efficient surgical treatment due to the risk of complications. Clinical diagnosis is difficult due to the confusion with other more frequent pathologies which present similar symptoms. Surgical treatment can be carried out in most cases through a transmastoid approach associating a multilayer repair.

**Keywords:** spontaneous temporal bone fistula, arachnoid granulations, unilateral hearing loss, cerebrospinal fluid, unilateral conductive hearing loss.

## Resumo

**Objetivo:** O objetivo deste trabalho é descrever nossa experiência no diagnóstico e tratamento da fistula espontânea de LCR e realizar uma revisão bibliográfica do tema.

**População:** Pacientes diagnosticados com fistula espontânea de LCR no osso temporal tratados no Serviço de Otorrinolaringologia no Hospital Italiano de Buenos Aires

**Material e Método:** Foram revisados os prontuários eletrônicos dos pacientes operados por fístula de LCR no ouvido entre 2004 e 2023. Foram incluídos todos os pacientes diagnosticados com fístula de LCR no ouvido espontânea em pacientes maiores de 18 anos, e foram excluídos aqueles com histórico que poderia causar uma fístula secundária como trauma encefalocraniano, cirurgias otológicas ou da base do crânio, otite média crônica com e sem colesteatoma, e tumores.

**Resultados:** Foram incluídos um total de 9 pacientes, dos quais 3 eram homens (33.3%) e 6 eram mulheres (66.7%). A idade média foi de 67 anos, com uma variação entre 54 e 89 anos. O tempo médio desde o início dos sintomas até a reparação cirúrgica foi de 2 anos. Levando em conta a localização anatômica, 3.3% das fístulas estavam localizadas apenas na região mastoide, enquanto 66.7% afetavam tanto a caixa timpânica quanto os mastoídes. A abordagem transmastoidal foi escolhida em todos os casos. O fechamento do defeito foi realizado com um mínimo de 3 camadas em todos os pacientes. A taxa de sucesso foi de 100% em um acompanhamento de 6 meses.

**Conclusões:** A fístula espontânea de LCR é uma patologia que requer um diagnóstico preciso e um tratamento cirúrgico eficiente devido ao risco de complicações. O diagnóstico clínico é difícil devido à confusão com outras patologias mais frequentes que apresentam sintomas semelhantes. O tratamento cirúrgico pode ser realizado na maioria dos casos através de uma abordagem transmastoidal associando um reparo multicamadas.

**Palavras-chave:** fístula espontânea do osso temporal, granulações aracnóides, perda auditiva unilateral, líquido cefalorraquidiano, perda auditiva condutiva unilateral.

## Introducción

Las fístulas de líquido cefalorraquídeo (FLCR) en el oído representan un desafío clínico y quirúrgico de alta complejidad en la otorrinolaringología. Debido a su naturaleza elusiva y a sus complicaciones, es fundamental un diagnóstico precoz para realizar un tratamiento oportuno.

Las FLCR en el oído pueden surgir como consecuencia de traumatismos encefalocraneales, cirugías otológicas, infecciones, malformaciones congénitas y, en algunos casos, pueden manifestarse de forma espontánea sin una causa aparente.

Para el desarrollo de las fístulas espontáneas, existen ciertos factores predisponentes, como el aumento de presión intracraneal (PIC), un índice de masa corporal (IMC) elevado, el síndrome de apneas obstructivas del sueño (SAOS) y las granulaciones aracnoideas (GA), que son proliferaciones anormales de la aracnoides que erosionan el hueso temporal<sup>(1, 2, 3)</sup>.

Gran parte de los pacientes presentan hipoacusia conductiva que es consecuencia de la ocupación por el LCR en el oído comprometido. Este cuadro suele confundirse con una otitis media efusiva (OME), lo que lleva a realizar tratamientos farmacológicos y a la colocación de diábolos de forma recurrente. Esto genera que haya una brecha de tiempo significativa entre el inicio de los síntomas y el diagnóstico definitivo de fístula<sup>(1, 4)</sup>.

Por este motivo, el diagnóstico presenta un desafío y requiere de una anamnesis minuciosa, un examen otorrinolaringológico y estudios de imágenes que nos permitan visualizar el defecto, como son la tomografía computada (TC) de alta resolución y la resonancia magnética (RNM) de huesos temporales. También es conveniente una evaluación audiológica completa para determinar el grado de compromiso auditivo.

El gold standard para determinar la presencia de LCR es a través del análisis de  $\beta$ -2 transferrina de la muestra y la proteína  $\beta$ -traza ( $p$ - $\beta$ T)<sup>(1, 2, 4, 5)</sup>. Esta última se encuentra principalmente en el LCR, aunque también está presente en la perilinfa y en los humores acuoso y vítreo. Es un marcador de referencia de LCR, con una sensibilidad diagnóstica descrita del 73-93% y una especificidad del 97-100%<sup>(6)</sup>. La detección de glucosa en el líquido de muestra a través de tiras reactivas ha sido un método tradicional para la detección de la presencia de LCR en la secreción nasal y del oído. Estas no son recomendadas de primera línea debido a su falta de especificidad y sensibilidad<sup>(7)</sup>.

El principal inconveniente que presentan los exámenes del líquido es el acceso a la muestra. En los pacientes con perforaciones timpánicas o con tubos de ventilación transtimpánica (TVT), la muestra puede tomarse a través del conducto auditivo externo sin dificultad. En los casos en los que el tímpano está íntegro, para acceder a la muestra hay que realizar una miringotomía con el riesgo consiguiente de generar una perforación residual o una sobreinfección a través de esta.

El abordaje quirúrgico depende del tamaño de la fístula, su ubicación, el estado general del paciente, la audición previa y las preferencias del cirujano a cargo. Los abordajes más utilizados en la actualidad son el transmastoideo, la craneotomía de fosa media o la combinación de ambos. El cierre del defecto puede hacerse monocapa o multicapa empleando materiales autólogos como injertos de cartílago o hueso, fascia y colgajos vascularizados, teniendo como ventaja la amplia disponibilidad, menor rechazo y bajo costo. Materiales sintéticos como el cemento óseo de hidroxiapatita presentan mayor tasa de rechazo y son costosos, pero son de fácil utilización<sup>(4, 8)</sup>.

## Objetivo

El objetivo de este trabajo es describir la experiencia en el diagnóstico y el tratamiento de las FLCR espontáneas y realizar una revisión bibliográfica del tema.

## Diseño

Descriptivo, retrospectivo.

## Población

Pacientes con diagnóstico de fístula espontánea de LCR en hueso temporal tratados en el Servicio de Otorrinolaringología en el Hospital Italiano de Buenos Aires.

## Material y Método

Se revisaron las historias clínicas electrónicas de los pacientes operados por FLCR de oído entre el 2004 y el 2023.

Se incluyeron todos aquellos pacientes mayores de 18 años de edad con diagnóstico de FLCR de oído espontánea. Se excluyeron los pacientes con antecedentes que pudiesen causar una fístula secundaria, como traumatismos encefalocraneanos, cirugías otológicas o de base de cráneo, otitis media crónica con y sin colesteatoma y tumores.

Se recabaron los datos relacionados con edad, sexo, sintomatología, tiempo de duración de los síntomas hasta el diagnóstico y factores de riesgo para fístula espontánea.

Se investigaron los métodos de diagnóstico utilizados, incluyendo la videorinofibrolaringoscopia, tomografía computada, resonancia magnética y toma de muestras de otorrea para  $\beta$ -2 transferrina y glucotest según el caso. Se utilizó fluoresceína in-

tratecal para identificar el sitio de la fístula en un solo paciente. Los estudios de imágenes, en todos los casos, fueron informados por médicos especialistas en diagnóstico por imágenes abocados al área de cabeza y cuello. Las imágenes tomográficas, junto con un breve resumen de los antecedentes clínicos, fueron expuestas a 2 miembros del equipo de otología que no tenían conocimiento de los procedimientos quirúrgicos. Los profesionales mencionados dieron su opinión acerca de la presencia o no de signos tomográficos que hiciesen pensar en una fístula espontánea probable, como zonas con adelgazamiento y falta de hueso en el tegmen asociado a ocupación por material hipodenso. Dichas opiniones después fueron comparadas con los hallazgos intraoperatorios.

Se analizó también la lateralidad de la fístula, la localización del defecto en el tegmen (timpánico, mastoideo o ambos) y la historia de colocación de tubos de ventilación previa.

Se registró el abordaje quirúrgico, la técnica de cierre utilizada (monocapa o multicapa) y el material empleado para cada caso. Definimos como tasa de éxito al porcentaje de pacientes en los que se logró un cierre quirúrgico exitoso y que no requirieron de una reintervención en los 6 meses posteriores al alta.

Finalmente, se revisó la evolución posoperatoria en relación con las complicaciones postquirúrgicas y recidivas de fístula.

Se realizó una búsqueda bibliográfica no sistemática en las plataformas de PubMed, Scielo y Google Scholar seleccionando aquellos artículos más relevantes para el tema y dándose mayor relevancia a aquellos más actuales y de mayor grado de evidencia.

## Resultados

Un total de 9 pacientes cumplieron los criterios de inclusión, de los cuales 3 eran hombres (33.3%) y 6 eran mujeres (66.7%). La edad promedio fue de 67 años, con un rango entre de 54 y 89 años.

En relación con las comorbilidades que podrían asociarse a las fístulas espontáneas, 6 pacientes presentaban sobrepeso (66.7%) y 3 obesidad tipo 1 (33.3%), con un índice de masa corporal promedio de 31.07 (rango entre 25 y 38.3). El 33.3% tenía diabetes mellitus tipo 2 (DBT2) y el 44.4% hipertensión arterial. Ningún caso presentó síndrome de apnea obstructiva del sueño ni registró el uso de terapia de presión positiva continua en las vías respiratorias (CPAP) (Tabla 1).

Paciente	Sexo	Edad	IMC	Comorbilidades
1	M	54	25	NO
2	F	72	29.4	NO
3	F	88	26.2	NO
4	M	72	28.4	NO
5	F	61	38.3	HTA / DBT II
6	F	63	36.3	HTA / DBT II
7	F	89	29.9	HTA / HIPOT
8	F	34	31.6	NO
9	M	76	28.6	HTA+DBT II

Tabla 1. IMC: Índice de masa corporal, HTA: Hipertensión, DBT II: Diabetes mellitus tipo 2, HIPOT: Hipotiroidismo.

En cuanto a la lateralidad de las fístulas, 4 (44.4%) se encontraban a nivel del hueso temporal derecho y 5 (55.6%) en el hueso temporal izquierdo. A excepción de un paciente, la totalidad de las fístulas se presentaron con efusión. En 6 de los casos (66.7%), se registró el antecedente de colocación de TVT.

En 2 pacientes se tomó una muestra del líquido del oído medio para análisis de  $\beta$ -2 transferrina (22.2%), ya que presentaban craneolicuorrea a través del TVT al momento de la consulta. En un único paciente, se tomó una muestra proveniente de la fosa nasal derecha para la realización de un glucotest, obteniéndose valores mayores a  $\frac{2}{3}$  de los niveles sanguíneos. Este paciente había consultado por rinorrea e hipoacusia unilateral, razón por la que se realizó una rinofibroscopia en donde se evidenció la salida de líquido cristal de roca a través de la trompa de Eustaquio (Imagen 1).

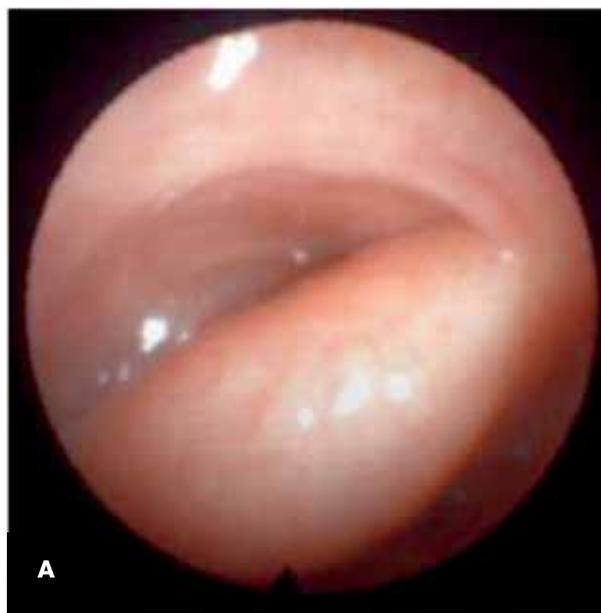


Imagen 1: Rinofibrolaringoscopia de la trompa de Eustaquio. A: Se evidencia la efusión de líquido cristal de roca previo a la cirugía.



(cont.) Imagen 1: Rinofibrolaringoscopia de la trompa de Eustaquio. B: Posterior a la cirugía.

Todos los pacientes fueron estudiados con TC de huesos temporales y a 7 pacientes (77.8%) se les realizó una RNM de cerebro y oídos (Tabla 2).

Paciente	TC	RNM	B2-T	Síntoma/TVT	T' transcurrido
1	Ocupación de caja timpánica	Ocupación otomastoidea con material hipointenso en T1 y T2	NO	Efusión	4 meses
2	Ocupación de caja timpánica	Sin estudio	NO	Efusión + TVT	2 años
3	Ocupación de caja timpánica	Ocupación otomastoidea con material hipointenso en T1 y T2	NO	Efusión + TVT	3 años
4	Ocupación de caja timpánica	Sin estudio	NO	Efusión + TVT	2 años
5	Ocupación de caja timpánica	Ocupación otomastoidea con material hipointenso en T1 y T2	SI	Efusión + TVT	6 años
6	Ocupación de caja timpánica	Probable DTT, vestíbulo laberíntico y CSS izquierdo	NO	Efusión + TVT	2 años
7	Ocupación de caja timpánica	Ocupación otomastoidea con material hipointenso en T1 y T2	SI	Efusión	1 año
8	Ocupación de caja timpánica	Ocupación otomastoidea con material hipointenso en T1 y T2	NO	Efusión+ TVT	10 meses
9	Ocupación de caja timpánica	Ocupación otomastoidea con material hipointenso en T1 y T2	NO	Hipoacusia y Rinorrea	1 año

Tabla 2. TC: Tomografía computada, CSS: Conducto semicircular superior, DTT: Dehiscencia del tegmen timpánico. RNM: Resonancia nuclear magnética, B2-T: B2-transferrina, TVT: Tubo de ventilación transtimpánico.

Los 9 pacientes presentaron informe de ocupación de caja timpánica y mastoides por material hipodenso, sin describir sitios probables de fistulas. Con respecto a la RNM, los 7 pacientes presentaron ocupación de caja y mastoides por líquido hipointenso en T1 y T2 y solo uno presentó informe de sospecha de dehiscencia de tegmen y de canal semicircular superior (Imagen 2).

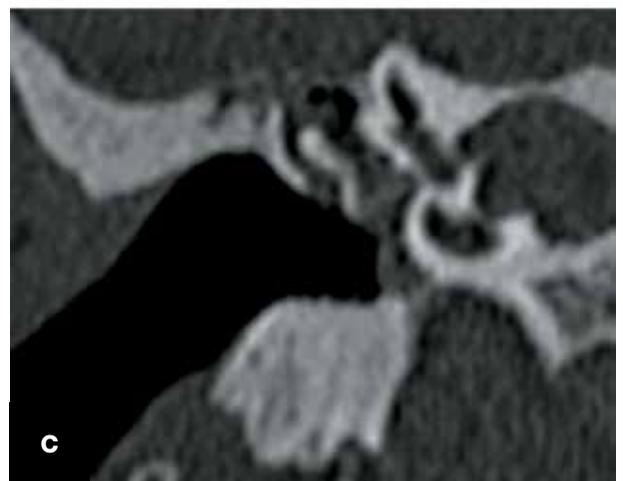
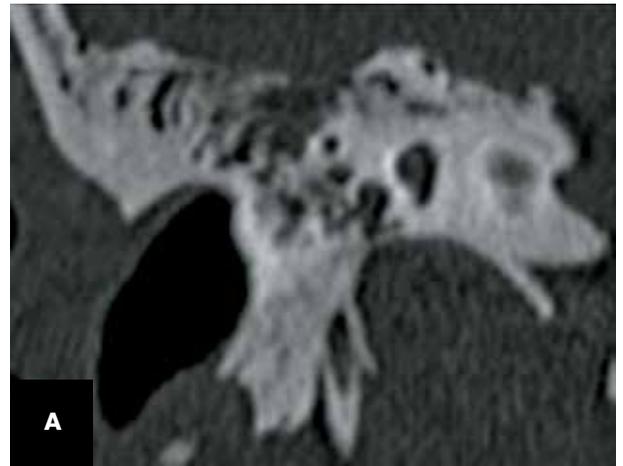
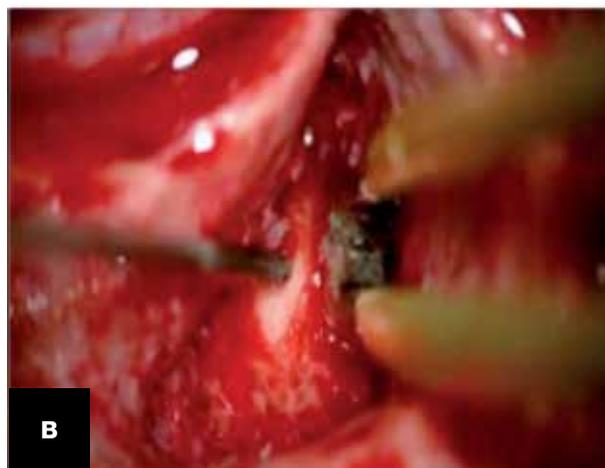


Imagen 2: se corresponde al paciente 8: A, B y C TC de huesos temporales en cortes coronales, en todos los casos se observa ocupación. A: dehiscencia de TM y del CSS, B: dehiscencia de TT a nivel del martillo, C: dehiscencia del TT a nivel del yunque,



(cont.) Imagen 2: D: RMN de huesos temporales con contraste endovenoso, T2 en donde se observa ocupación y dehiscencia de CSS .



(cont.) Imagen 3: B: Cauterización de granulación aracnoidea con bipolar.

Las TC fueron posteriormente evaluadas por 2 miembros senior del equipo de otología, quienes en 5 de los 9 casos señalaron al menos un sitio probable de fístula en el hueso temporal ocupado.

El tiempo promedio de inicio de los síntomas hasta la reparación quirúrgica fue de 2 años, dentro de un rango de 4 meses a 6 años. En todos los casos, el abordaje transmastoides fue suficiente para la identificación y reparación de los defectos, sin necesidad de requerir un abordaje combinado con craneotomía por fosa media.

Teniendo en cuenta la localización anatomocirúrgica, el 33.3% de las fístulas se localizaban en la región mastoidea únicamente, mientras que el 66.7% también comprometían al tegmen timpánico. En 6 de los casos (66.6%), se identificó la presencia de granulaciones aracnoideas como el factor causal

(Imagen 3). En sólo dos casos se logró obtener material suficiente para confirmar la presencia de estas por anatomopatología.

El cierre del defecto se realizó con un mínimo de 3 capas en todos los pacientes. Se utilizaron injertos autólogos, como fascia del músculo temporal en 7 pacientes (77.8%), pasta ósea en 6 pacientes (66.7%), pericondrio auricular en 2 pacientes (33.3%), cartilago de trago auricular en 7 pacientes (77.8%) y grasa del abdomen en 6 pacientes (66.7%) (Imagen 4, ver en pág. siguiente). También se utilizaron otros materiales sintéticos, como es la celulosa regenerada oxidada (Surgicel®), que actúa como un hemostático absorbible en 2 pacientes (22.2%); adhesivos de fibrina en 5 pacientes (Tissucol® y Beriplast®) (55.6%), y adhesivos biocompatibles de polietilenglicol (Co-seal®) en 1 paciente (11.1%). El seguimiento posoperatorio fue de entre 6 meses y 16.5 años con un promedio de 8.5 años. A los 6 meses de seguimiento, se observó una tasa de éxito del 100%.

La Tabla 3 resume la localización del defecto, la presencia de granulaciones aracnoideas, el tipo de injerto utilizado para la reconstrucción y el tiempo de seguimiento postoperatorio.

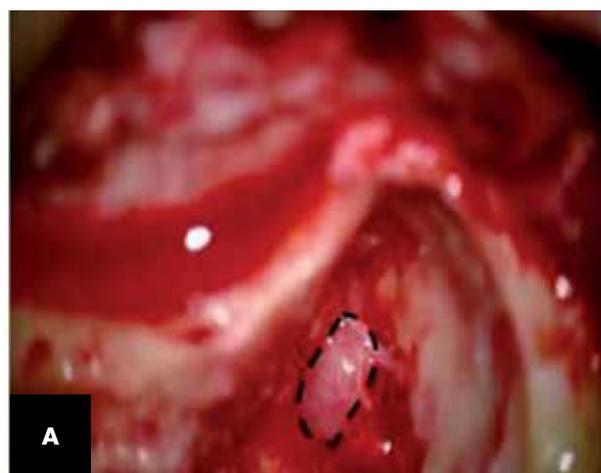


Imagen 3: se evidencia la presencia de granulaciones aracnoideas como factor desencadenante en uno de nuestros pacientes. A: Granulación aracnoidea.

Paciente	Lateralidad	Localización	Abordaje	Presencia de GA	AP	Injertos	Follow up
1	Der	Mt	TM	NO	NO	FT + PO + GAb + TC	16 años y 4 meses
2	Izq	Mt	TM	SI	NO	FT + CT + GAb + SC	9 años y 4 meses
3	Izq	Mt + Tp	TM	SI	SI	CT + PC + PO + GAb + TS	1 año y 10 meses
4	Der	Mt	TM	SI	NO	FT + PC + PO + GAb + TC	6 meses
5	Izq	Mt + Tp	TM	SI	SI	CT + PC + GAb	2 años y 6 meses
6	Izq	Mt + Tp	TM	SI	NO	FT + CT + PO + BP	6 meses

7	Izq	AT	TM	NO	NO	FT+GAb + BP	6 meses
8	Der	AT	TM	SI	SI	CT+PO+FT+ COS	5 años
9	Der	Mt	TM	SI	NO	CT+PO+SC+ FT	7 meses

Tabla 3. Izq: Izquierda, Der: Derecha, Mt: Mastoides, Tp: Caja timpánica, AT: ático, AP: Anatomía patológica, TM: Transmasoideo, FT: Fascia temporal, CT: Cartílago tragal, PO: Pasta ósea, GAb: Grasa abdominal, GA: Granulaciones aracnoideas, SC: Surgicel®, TC: Tissucol®, BP: Beriplast®, COS: Coseal®.

Se registró una sola complicación (11.1%) en el postoperatorio inmediato. Un paciente presentó convulsiones con requerimiento de tratamiento médico e internación en unidad de cuidados intensivos para su monitoreo durante 48 horas, con recuperación *ad integrum* sin secuelas posteriores, pasando a sala de internación general y recibiendo el alta a las 72 horas del procedimiento. Dicha complicación se atribuyó al efecto adverso de la fluoresceína.

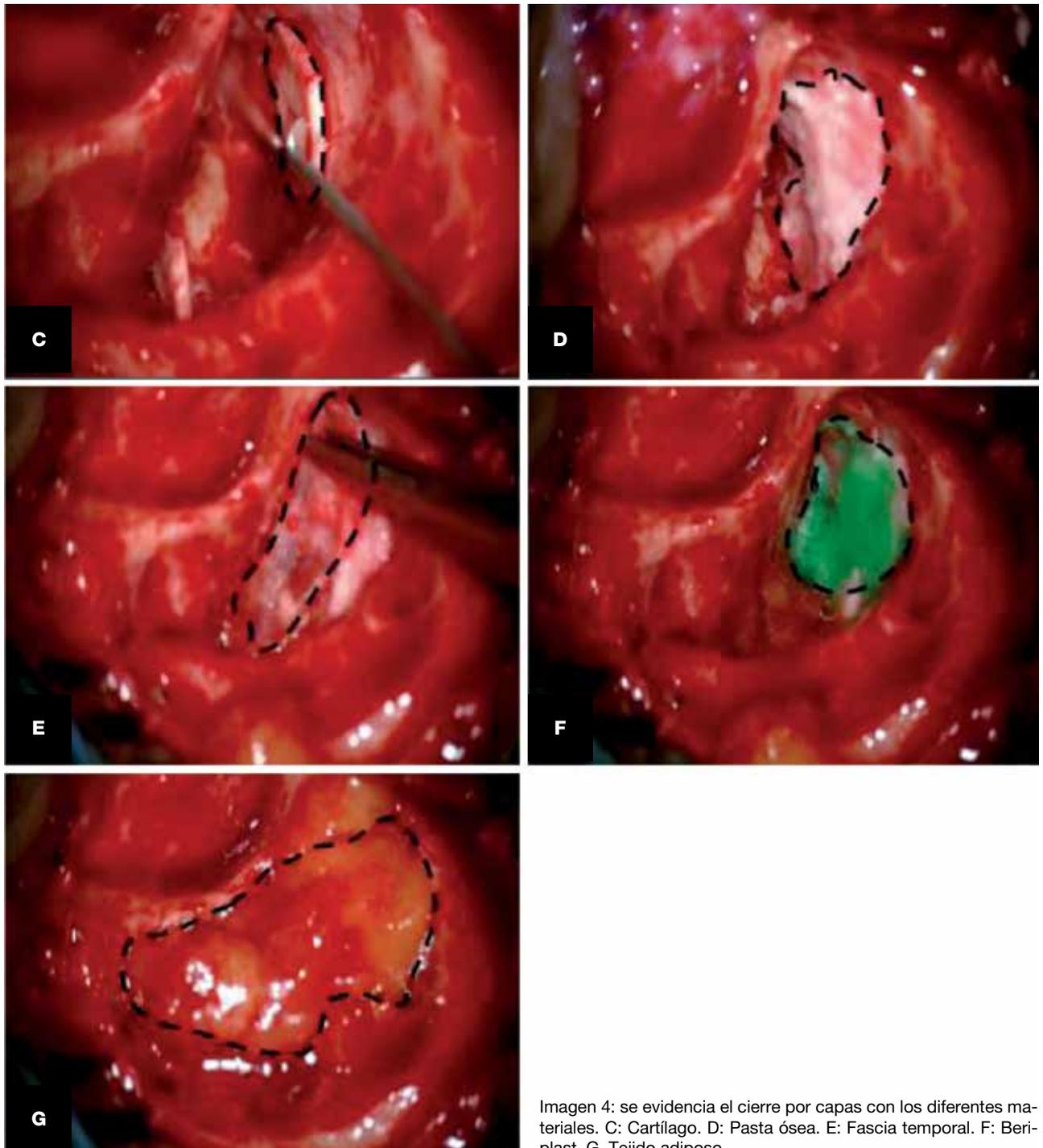


Imagen 4: se evidencia el cierre por capas con los diferentes materiales. C: Cartílago. D: Pasta ósea. E: Fascia temporal. F: Beriplast. G. Tejido adiposo.

## Discusión

La fístula espontánea de líquido cefalorraquídeo de hueso temporal es una entidad clínica de relevancia, ya que, a pesar de ser una patología poco frecuente, la identificación precisa y el tratamiento quirúrgico son imperativos para prevenir complicaciones potencialmente graves.

La demora en el diagnóstico es un problema habitual debido a que puede confundirse con una patología mucho más frecuente y de menor gravedad, como es el caso de la otitis media efusiva (OME). La presencia de otorrea serosa persistente después de la colocación de tubos transtimpánicos, especialmente en un paciente sin obstrucción nasofaríngea o antecedentes de enfermedad crónica del oído o traumatismo, debería generar sospechas de una fuga espontánea de LCR.

En la presente serie de casos, el lapso transcurrido entre el inicio de los síntomas y el diagnóstico de fístula fue de 2 años en promedio. Comparativamente, Kutz et al.<sup>(4)</sup> reportaron en su investigación un tiempo medio de 27 meses entre el inicio de los síntomas y el diagnóstico.

En esta misma serie, el síntoma de presentación más común fue la otorrea a través del tubo de ventilación transtimpánico en 34 pacientes (68%). En otro estudio<sup>(1)</sup>, los motivos de consulta principales fueron la hipoacusia unilateral (81% de casos) y la plenitud auditiva (46% de casos). De los 90 pacientes evaluados, 12 presentaron antecedentes de colocación de TVT. En la casuística actualmente presentada, el 88.8% de los casos fueron diagnosticados inicialmente como OME y, dentro de este grupo, el 75% fueron sometidos a la colocación de TVT.

Vale destacar la particularidad del paciente número 9 (Tabla 2), quien presentó hipoacusia conductiva y rinorrea homolateral. El último es un síntoma cardinal en las fístulas nasales, pero es muy infrecuente en las fístulas de hueso temporal. Al momento, existen sólo cuatro artículos publicados al respecto y en ninguno se asoció granulaciones aracnoideas de hueso temporal como la causa de fístula espontánea.

En relación con las comorbilidades de estos pacientes, la literatura señala la obesidad y el SAOS como factores de riesgo para el desarrollo de FLCR espontáneas. Nelson et al.<sup>(9)</sup> identificaron a la obesidad como un factor de riesgo significativo, ya que conduciría a un aumento de la PIC, ya sea de forma crónica o intermitente. Su investigación sugiere además que las apneas pueden desencadenar hiper-

capnia, generando así un aumento en la vasodilatación cerebral y, por ende, también de la PIC. Ellos reportaron una prevalencia de SAOS del 43% en su cohorte.

En la presente serie de casos, similar al trabajo de Hendriks et al.<sup>(1)</sup>, el 33,3% presentó obesidad, el 66.7% tenía sobrepeso y ningún paciente presentó un diagnóstico de SAOS.

Con respecto al diagnóstico, la  $\beta$ -2 transferrina tiene una sensibilidad cerca del 100% y una especificidad de alrededor del 95%. En la serie presentada de casos, a 2 pacientes se les tomó una muestra del líquido del oído medio para análisis de  $\beta$ -2 transferrina (22.2%), ya que presentaban craneoliquorrea a través del TVT al momento de la consulta.

La detección de glucosa en el líquido de muestra a través de tiras reactivas ha sido un método tradicional para la detección de la presencia de LCR en la secreción nasal y del oído. Esta no es recomendada de primera línea debido a su falta de especificidad y sensibilidad. La interpretación de los resultados es confusa por diversos factores, como la contaminación por líquidos que contienen glucosa (lágrimas, moco nasal, sangre en el moco nasal) o niveles relativamente bajos de glucosa en el LCR<sup>(7)</sup>.

Cuando el nivel de glucosa de la muestra es mayor a  $\frac{2}{3}$  del nivel en sangre, como en el paciente 9 de nuestra serie, es sugestivo de estar ante la presencia de LCR. Si bien no es un examen complementario ideal, consideramos que puede ser útil en caso de que no se disponga de la  $\beta$ - transferrina como elemento diagnóstico<sup>(10)</sup>.

La tomografía computarizada de alta resolución en cortes coronales y axiales de hueso temporal suele ser suficiente para identificar el defecto del tegmen. La RMN, como complemento, permite en los cortes coronales en T2 delinear de manera más clara la posible herniación concomitante de la duramadre o de la aracnoides. También permitiría diagnosticar una silla turca vacía, hallazgo diagnóstico en la hipertensión intracraneal idiopática, así como a la otorrea espontánea por LCR<sup>(11)</sup>.

Los autores consideran de relevancia que el otólogo se involucre en la evaluación minuciosa de las imágenes, ya que cuenta con un amplio conocimiento anatómico quirúrgico del hueso temporal y con herramientas clínicas que elevarían la sospecha de la existencia de una fístula. Como se puede observar en la tabla 4, todos los casos en que los 2 miembros del equipo de otología identificaron un probable sitio de fístula fueron confirmados posteriormente en el intraoperatorio.

Paciente	Informe de TC por EI	Sospecha por EO	Hallazgos intraquirúrgicos
1	Ocupado	Ocupado	FE entre CSE y CSP
2	Ocupado	Dehiscencia de TM	GA en TM
3	Ocupado	Dehiscencia de TT y TM	GA en TT y TM
4	Ocupado	No se observa dehiscencia	GA en TM
5	Ocupado	Dehiscencia en TT	GA en TT y TM
6	Ocupado	Ocupado	GA en TT y TM
7	Ocupado	Ocupado	Dehiscencia en TT
8	Ocupado Dehiscencia de CSS	Dehiscencia en TT, TM y CSS	Dehiscencia en TM y GA en TT
9	Ocupado	Dehiscencia en TM	GA en TM

Tabla 4. EI: Especialista en imágenes, EO: Otorrinolaringólogo especialista en otología, GA: Granulaciones aracnoideas, CSE: Canal semicircular externo, CSS: Canal semicircular superior, TC: Tomografía computada, TT: Tegmen timpánico, TM: Tegmen mastoideo.

Investigaciones actuales señalan un aumento significativo en la incidencia de FLCR en el hueso temporal durante las últimas dos décadas. Como resultado, se ha observado una demanda creciente de procedimientos de cierre. En el metaanálisis de Kutz et al.<sup>(4)</sup>, se evidencia una duplicación en el número de cierres quirúrgicos por esta patología.

Durante la planificación quirúrgica, se debe seleccionar una vía de abordaje, que puede ser transmastoidea, por fosa media o a través de una combinación de ambas técnicas. Hendriks et al.<sup>(1)</sup> prefieren el abordaje por fosa media al considerar beneficioso contar con una visualización directa del defecto, dejando a la técnica transmastoidea para aquellos pacientes con patología coexistente en oído medio, mastoides o fosa media posterior.

El éxito del abordaje transmastoideo para el tratamiento de las fístulas de tegmen se ha descrito

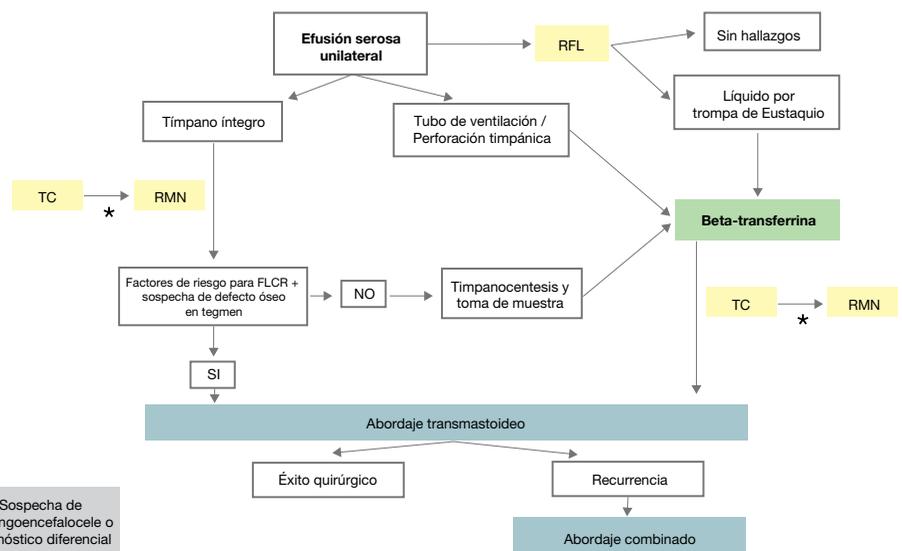
para huesos temporales con defectos únicos o múltiples<sup>(12, 13, 14)</sup>.

Kim et al.<sup>(2)</sup> muestran en su serie de casos una tasa de éxito de 93% a 9 meses utilizando este tipo de abordaje. En la presente serie, el abordaje transmastoideo permitió una exposición suficiente para la localización del defecto y el cierre de este. La elección se basó en las ventajas inherentes a dicho enfoque, como detallan Kutz et al.<sup>(3)</sup> en su metaanálisis. Al no realizarse una craneotomía, hay menor riesgo de complicaciones como la lesión del lóbulo temporal por retracción, las convulsiones y el hematoma. Además, el paciente puede prescindir de la internación en unidades de cuidados intensivos.

Savva et al.<sup>(7)</sup> observaron una tasa de cierre del 75.4% al emplear únicamente una única capa, mientras que la utilización de múltiples capas resultó en una tasa de cierre del 100%. Por otro lado, Kutz<sup>(3)</sup> y su equipo exponen que la reparación multicapa ofrece la ventaja de fusionar una superficie duradera con un sellado de tejido blando, contribuyendo así a prevenir la fuga de LCR. En la serie actual, el abordaje transmastoideo y realizando el cierre con múltiples capas permitió una tasa de éxito a 6 meses del 100%, coincidiendo con la bibliografía previamente mencionada.

En todos los pacientes, se decidió realizar la técnica multicapa con diferentes materiales, como cartílago, fascia, pasta ósea, grasa, Surgicel®, Tissucol®, Beriplast® y Coseal®. De todos ellos, ninguno presentó complicaciones postoperatorias relacionadas con el sellado.

A partir de esta experiencia y de la revisión previamente mencionada, se propone un algoritmo para el diagnóstico y tratamiento de la fístula espontánea de hueso temporal (Algoritmo 1).



Algoritmo 1: Diagnóstico y tratamiento de la fístula espontánea de hueso temporal, TC: Tomografía computada, RMN: Resonancia magnética nuclear, RFL: Rinofibrolaringoscopia.

\* Sospecha de meningoencefalocelo o diagnóstico diferencial

Todo paciente con ocupación serosa unilateral que no resuelve con tratamiento médico debe ser estudiado con una rinofibrolaringoscopia, por un lado, para descartar patología tumoral de rinofaringe y, por otro, para detectar aquellos casos con salida de líquido a través de la trompa de Eustaquio. Si este es el caso, se toma una muestra y se envía a analizar la presencia de beta transferrina. En caso de ser positiva, se procederá al estudio del paciente con imágenes complementarias.

En la otomicroscopía, el primer punto a analizar es la integridad de la membrana timpánica. En aquellos casos de perforaciones o de tubos de ventilación timpánica, se toma una muestra del líquido del oído medio a través de estos. Por el contrario, en caso de constatar la integridad de la membrana timpánica, se procede a evaluar la anatomía del oído y estructuras aledañas mediante una imagen de huesos temporales. Se sugiere iniciar con una tomografía computada de alta resolución. En caso de que se sospeche de un meningoencefalocele o para descartar otros diagnósticos diferenciales (como un colesteatoma o una neoplasia, por ejemplo), se recomienda complementar la evaluación con una resonancia magnética nuclear.

Si en la tomografía se sospecha de un defecto óseo del tegmen y el paciente tiene antecedentes personales para fístula espontánea de LCR, puede plantearse la exploración a través de un abordaje transmastoideo para la identificación y cierre del defecto como primera elección. Se reservará la paracentesis para la obtención de la muestra para los casos que no presenten las 2 condiciones previamente mencionadas. En caso que se presentase una recurrencia, debe considerarse la necesidad de un abordaje combinado con el equipo de neurocirugía.

## Conclusiones

El diagnóstico de las fístulas espontáneas de hueso temporal suele ser tardío debido a que patologías más frecuentes, como es la OME, suelen manifestar síntomas similares.

En aquellos casos donde se puede obtener una muestra de líquido y se sospecha de FLCR, es recomendable la confirmación mediante una prueba de  $\beta$ -2 transferrina. La TC de peñascos sin contraste permite identificar la zona del defecto y la RMN es útil para evaluar la presencia de encefalocele, signos de hipertensión endocraneana benigna y en caso que se sospeche de algún diagnóstico diferencial. Se propone un algoritmo para orientar al diagnóstico y tratamiento de esta patología.

El enfoque transmastoideo generalmente es suficiente para resolver la mayoría de los casos, dado que proporciona una excelente visualización del defecto, tiene una alta tasa de éxito y un bajo riesgo de complicaciones. Se recomienda en todos los casos emplear la técnica de cierre en múltiples capas con injertos autólogos, ya que disminuye la tasa de recurrencia. Además, se pueden utilizar materiales sintéticos para reforzar y sellar la fístula.

**Los autores no manifiestan conflictos de interés.**

## Bibliografía

- Hendriks T, Bala A, Kuthubutheen J. Spontaneous cerebrospinal fluid leaks of the temporal bone - clinical features and management outcomes. *Auris Nasus Larynx*. 2022; 49(1):26-33.
- Kim L, Wisely CE, Dodson EE. Transmastoid approach to spontaneous temporal bone cerebrospinal fluid leaks: hearing improvement and success of repair. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2014; 150(3):472-478.
- Kutz JW Jr, Tolisano AM. Diagnosis and management of spontaneous cerebrospinal fluid fistula and encephaloceles. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2019; 27(5):369-375.
- Kutz JW Jr, Johnson AK, Wick CC. Surgical management of spontaneous cerebrospinal fistulas and encephaloceles of the temporal bone. *Laryngoscope*. 2018; 128(9):2170-2177.
- Gupta A, Sikka K, Irugu DVK, Verma H, Bhalla AS, Thakar A. Temporal bone meningoencephaloceles and cerebrospinal fluid leaks: experience in a tertiary care hospital. *The Journal of Laryngology & Otology*. 2019; 133(3):192-200.
- Cárdenas Fernández MC, et al. Utilidad de la 2-transferrina y la proteína -traza en el diagnóstico de fístula de líquido cefalorraquídeo. *Rev Lab Clin*. 2017.
- Abuabara A. Cerebrospinal fluid rhinorrhoea: diagnosis and management. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2007; 12(5):397-400.
- Savva A, Taylor MJ, Beatty CW. Management of cerebrospinal fluid leaks involving the temporal bone: report on 92 patients. *Laryngoscope*. 2003; 113(1):50-56.
- Nelson RF, Roche JP, Gantz BJ, Hansen MR. Middle Cranial Fossa Approach Without the Use of Lumbar Drain for the Management of Spontaneous Cerebral Spinal Fluid Leaks. *Otol Neurotol*. 2016; 37(10):1625-1629.
- Gonen L, Handzel O, Shimony N, Fliss D, Margalit N. Surgical management of spontaneous cerebrospinal fluid leakage through temporal bone defects case series and review of the literature. *Neurosurg Rev*. 2015; 39(1):141-150.
- Goddard JC, Meyer T, Nguyen S, Lambert PR. New Considerations in the Cause of Spontaneous Cerebrospinal Fluid Otorrhea. *Otology & Neurotology, Inc*. 2010; 31(6):940-945.
- Patel NS, Canopy E, Sheykholslami K. Trans-mastoid management of temporal bone tegmen defects, encephaloceles and CSF leaks. *J Otol Rhinol*. 2012; 2:1-5.
- Rivera D, Fermin-Delgado R, Stoeter P. "Spontaneous" CSF Fistula due to Transtegmental Brain Herniation in Combination with Signs of Increased Intracranial Pressure and Petrous Bone Hyperpneumatization: An Illustrative Case Report. *J Neurol Surg Rep*. 2014; 75(2):251-254.
- Oliaei S, Mahboubi H, Djalilian HR. Transmastoid approach to temporal bone cerebrospinal fluid leaks. *Am J Otolaryngol*. 2012; 33(5):556-561.