



COMUNICACIÓN BREVE

Otitis externa maligna. Nuestra experiencia

Palmira Pérez*, Maria J. Ferrer, Aranzazu Bermell, Rafael Ramírez, Vicente Saiz y Javier Gisbert

Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario de la Ribera, Alzira, Valencia, España

Recibido el 17 de diciembre de 2009; aceptado el 17 de febrero de 2010

Disponible en Internet el 18 de abril de 2010

PALABRAS CLAVE

Otitis externa maligna;
Otitis externa necrotizante

KEYWORDS

Malignant otitis externa;
Necrotizing otitis externa

Resumen

La otitis externa maligna es una infección severa cuyo diagnóstico y tratamiento continua suponiendo un reto para el clínico. El objeto de este estudio es demostrar la importancia de un análisis clínico detallado y aportar una puesta al día de las herramientas diagnósticas y terapéuticas actualmente disponibles.

© 2009 Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Malignant otitis externa. Our experience

Abstract

Malignant otitis externa is a devastating disease that poses a diagnostic and therapeutic challenge. The objective of our study was to demonstrate the importance of detailed clinical analysis and to provide an update on the current diagnostic and therapeutic tools available.

© 2009 Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

La otitis externa maligna (OEM) es una enfermedad severa cuyo diagnóstico y tratamiento supone un reto para cualquier especialista. La primera descripción fue realizada en 1959 por Meltzer y Kelemen¹, pero es en 1963 y 1968 con los trabajos de Chandler² cuando se define el término de OEM.

La OEM aparece en pacientes con defensas inmunitarias disminuidas sobre todo diabéticos de edad avanzada (90%), generalmente insulino dependientes mal controlados. También existen formas de OEM en jóvenes y niños. El principal diagnóstico diferencial son los tumores malignos del conducto auditivo externo (CAE)³.

Si hace algunos años la mortalidad era elevada, en la actualidad el pronóstico ha mejorado debido a la buena respuesta al tratamiento prolongado con quinolonas. El objeto de este estudio es demostrar la importancia de un análisis clínico detallado y aportar una puesta al día de las herramientas diagnósticas y terapéuticas actualmente disponibles.

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: pa.perez@comv.es (P. Pérez).

Material y método

Realizamos un estudio prospectivo sobre 8 pacientes tratados en nuestro centro con el diagnóstico de OEM entre los años 2005–2009 (tabla 1). En cuanto al protocolo diagnóstico, realizamos TC y la combinación de gammagrafía con Tc-99m y Ga-67, esta última fundamental para el seguimiento. Solicitamos RM solo en caso de complicaciones neurológicas.

En todos los casos se realizó biopsia del CAE y cultivo bacteriológico.

Todos nuestros pacientes fueron ingresados para recibir tratamiento. Este consistió primeramente en cura local y administración tópica de ciprofloxacino 2 veces al día y antibioterapia intravenosa. Se procedió a control de la glucemia y tratamiento con antidiabéticos orales o insulina.

Nuestros criterios de alta hospitalaria fueron: otoscopia normal, valores de proteína C reactiva y velocidad de sedimentación globular en límites de normalidad y gammagrafía Ga-67 negativa. Al alta, todos los pacientes siguieron un tratamiento con ciprofloxacino 500 mg/12 h oral durante 6 semanas.

Resultados

En el estudio bacteriológico se aisló *Pseudomona aeruginosa* en 3 casos, *Aspergillus flavus* en uno, *Cándida albicans* en 2 y en 2 pacientes los cultivos fueron negativos.

En la TC se apreció erosión ósea y ocupación del CAE y oído medio (fig. 1) y en la gammagrafía Ga-67 un aumento de reacción osteogénica en peñasco (fig. 2).

La analítica mostró elevación de la proteína C reactiva y velocidad de sedimentación globular en todos los casos.

La duración media del tratamiento intravenoso fue de 6 semanas (rango 3–12). Los pacientes fueron tratados con cefalosporina de 3.^a generación y una fluoroquinolona o antibiótico antipseudomona de amplio espectro (piperacilina-tazobactam, imipenem). En los casos en que se detectó como patógeno *Aspergillus flavus* o *Cándida albicans*, se administró además Anfotericina B, salvo en un caso con cirrosis hepática que se administró un imidazol y otro caso en el cual no se aisló germen que respondió satisfactoriamente.

Cuatro pacientes presentaron una parálisis facial, uno de ellos desde el momento del diagnóstico. De estos 4 pacientes, uno presentó además afectación de otros pares craneales. Dos pacientes recuperaron la función facial durante el tratamiento.

Un paciente sufrió un accidente cerebrovascular pontino durante el tratamiento.

En un paciente, dada la ausencia de mejoría con tratamiento médico, la persistencia de tejido de granulación y afectación del facial, se realizó una mastoidectomía.

En 3 pacientes el control de la otalgia fue muy complicado pese al tratamiento con mórnicos, recibieron oxigenoterapia hiperbárica al alta con resultados satisfactorios.

Dos pacientes presentaron recidiva de la enfermedad a las 3 y 12 semanas respectivamente. Uno de ellos evolucionó favorablemente tras tratamiento y el otro, en el que coincidieron varios factores (edad, mal control de su

| Paciente | Edad | Sexo | ID | Oído afecto | Afectación PC | Pólipos y granulación | Germen | VSG y PCR elevados | Tratamiento | Evolución |
|----------|------|------|----|-------------|---------------|-----------------------|--------------------|--------------------|----------------------------------------------------------------------------|-----------------------------------------------|
| 1 | 83 | H | DM | OI | VII, IX | No | <i>Aspergillus</i> | Sí | Anfotericina B+piperacilina+fluoroquinolona | Recidiva a las 3 semanas y éxitus Curación |
| 2 | 77 | H | DM | OI | VII | Sí | <i>Candida</i> | Sí | Anfotericina B+cefalosporina de 3. ^o generación+fluoroquinolona | Curación |
| 3 | 73 | H | DM | Bilateral | VII | Sí | No se aisló germen | Sí | Anfotericina B+Tazobactam+fluoroquinolona | Recidiva a las 12 semanas y curación |
| 4 | 70 | M | DM | OD | No | Sí | <i>Pseudomona</i> | Sí | Imipenem+fluoroquinolona | Curación |
| 5 | 76 | M | DM | OD | VII | Sí | <i>Pseudomona</i> | Sí | Tazobactam+fluoroquinolona | Curación |
| 6 | 80 | H | DM | OD | No | Sí | <i>Pseudomona</i> | Sí | Piperacilina+fluoroquinolona | Curación |
| 7 | 70 | H | DM | OD | No | Sí | No se aisló germen | Sí | Cefalosporina de 3. ^a generación+fluoroquinolona | Curación |
| 8 | 57 | H | DM | OI | No | Sí | <i>Candida</i> | Sí | Imipenem+imidazol+fluoroquinolona | Curación |

ID: inmunodepresión; PC: pares craneales; PCR: proteína C reactiva.



Figura 1 TC.

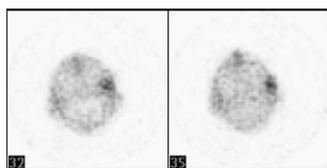


Figura 2 Gammagrafía Ga-67.

diabetes, afectación de pares craneales y ACV pontino), falleció. El resto, están libres de enfermedad.

Discusión

La OEM u otitis externa necrosante progresiva es una infección rara y grave del CAE que puede poner en peligro la vida del paciente. Fisiopatológicamente, resulta de la conjunción de un terreno predispuesto y la invasión del CAE por un germen oportunista. El terreno predispuesto es el del paciente diabético y la microangiopatía diabética responsable de la hipoperfusión tisular⁴, presente en todos nuestros pacientes. El germen oportunista, la *Pseudomona*, cuya prevalencia es más alta en la mayoría de la literatura que en nuestra serie, probablemente debido al tratamiento previo con quinolonas lo que explicaría la negatividad de algunos de los cultivos.

La infección se propaga a partir del CAE provocando una osteítis extensiva. Rubin⁵ encuentra en un 60% de los casos un factor desencadenante esencialmente un traumatismo del CAE (extracción de un tapón de cera, prótesis auditiva) y subraya igualmente la importancia del clima como en las otitis externas banales.

La OEM comienza con una otalgia discreta lo que explica el diagnóstico tardío de la enfermedad. En el 20–30% de los casos aparece parálisis facial, a menudo completa^{4,5}. La afectación de otros pares craneales (IX, X, XI, XII) aparece en un 15–35%² indicando la extensión de la infección a la base del cráneo. Cuatro de nuestros pacientes presentaron parálisis facial, uno desde el momento del diagnóstico. En uno se afectó además el nervio hipogloso. Clásicamente se ha considerado la afección de pares craneales como un indicador de peor pronóstico⁶; sin embargo, estudios recientes no encuentran diferencias en la supervivencia^{7,8}.

Si bien es más frecuente en ancianos diabéticos (90%), la OEM aparece también en otras inmunodeficiencias como hemopatías, tratamientos con inmunosupresores y SIDA. En este último caso, afecta a pacientes más jóvenes con enfermedad evolucionada, no hay tejido de granulación, el germen predominante es el *Aspergillus* y la infección es más seria con una tasa de mortalidad más elevada del 42%⁹.

La aparición en niños es rara, asociándose a diabetes, anemia y malnutrición, así como tratamiento con quimioterapia.

Aunque la *Pseudomona* es el germen más frecuente, también se han descrito casos por *Stafilococcus aureus* o *epidermidis*, *Proteus mirabilis*. La infección por hongos como *Aspergillus* y *Cándida* es más severa y la mortalidad mayor (42%)¹⁰. En nuestra serie, el paciente con peor evolución fue aquel en el que se aisló el *Aspergillus*.

La analítica muestra a menudo una elevación de los marcadores inflamatorios e infecciosos que a pesar de su falta de especificidad constituyen un parámetro evolutivo interesante.

El diagnóstico y seguimiento de la OEM ha mejorado considerablemente con el desarrollo de las modernas técnicas de imagen¹⁰.

La TC es útil para confirmar el diagnóstico¹¹. En las formas evolucionadas, permite valorar la extensión de la enfermedad al macizo petroso, espacios subtemporales peritubáricos, parafaríngeos y la articulación tèmpero mandibular. Sin embargo, no es una prueba específica y tiene poco interés en el seguimiento. La RM es útil para definir la afectación de las partes blandas sobre todo las infratemporales, pero es también de poco valor en el seguimiento¹¹.

La gammagrafía ocupa un lugar importante en el diagnóstico y seguimiento. La gammagrafía ósea con Tc-99m está considerada como el examen clave para el diagnóstico precoz^{12,13}. La fijación del Tecnecio está correlacionada con la actividad osteolítica lo que explica su alta sensibilidad (100%), pero su especificidad es baja¹⁴. Permanece positiva tiempo después de la curación por lo que carece de interés en el seguimiento.

La gammagrafía con Ga-67 se considera clave para el control y seguimiento evolutivo por su alta especificidad. La normalización de la prueba confirma la curación de la enfermedad^{15,3}.

Actualmente la base del tratamiento es la antibioterapia, dejando el desbridamiento quirúrgico y tratamientos adicionales como el oxígeno hiperbárico para aquellos casos con mala respuesta y evolución tórpida¹⁰.

En general, se recomienda ingreso hospitalario para completar el estudio e instauración precoz del tratamiento. Se han propuesto varias pautas, la mayoría de los autores asocia una cefalosporina de 3.ª generación y una fluoroquinolona para evitar resistencias^{16,17,13}. Otros utilizan la asociación de penicilina semisintética con un aminoglicosido, pero su potencial toxicidad aconseja su uso solo en caso de multiresistencias en el antibiograma. Ciertos autores preconizan una monoterapia (cefalosporina de 3.ª generación o fluoroquinolonas de excelente resultado en la forma limitada de OEM. El control de la diabetes es muy importante. La duración del tratamiento por vía parenteral oscila entre 4–6 semanas. En nuestra experiencia es importante la prolongación del tratamiento antibiótico (fluoroquinolona) por vía oral durante una media de

6 semanas. Para la suspensión del tratamiento se requiere un seguimiento regular hasta la curación clínica completa y la normalización de la gammagrafía con Ga-67.

Actualmente la mortalidad ha disminuido desde un 30–40% a un 20%^{13,10}. Las recurrencias pueden darse hasta un año después de finalizado el tratamiento, por ello se considera necesario un seguimiento regular y prolongado del paciente.

Conclusiones

La OEM es una entidad infrecuente pero grave, que puede aparecer como complicación de una otitis externa en pacientes diabéticos e inmunodeprimidos. Si no se trata adecuadamente puede ser mortal.

El diagnóstico y tratamiento precoz en la osteomielitis del temporal es fundamental para el pronóstico de la enfermedad.

El tratamiento, si el cultivo es positivo, se debe establecer en base al antibiograma dada la aparición de resistencias al ciprofloxacino.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Meltzer PE, Keleman G. Pyocyanous osteomielitis of the temporal bone, mandible, and zygoma. *Laryngoscope*. 1959;69:1300–16.
- Chandler JR. Malignant external otitis. *Laryngoscope*. 1968;78:1257–94.
- Thiagarajah R, Chapman P, Irvine A. Malignant otitis externa or malignancy: Report of two cases. *European journal of radiology extra* [electronic resource]. 2008;67:9–12.
- Cohen D, Friedman P. The diagnostic criteria of malignant external otitis. *J Laryngol Otol*. 1987;101:216–21.
- Rubin J, Yu VL, Kameron DB, Wagener M. Aural irrigation with water: a potential pathogenic mechanism for inducing malignant external otitis? *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1990;99:117–9.
- Rene R, Mas A, Villabona CM, Ricart MC, Bassa A, Tolosa F. Otitis externa maligna and cranial neuropathy. *Neurologia*. 1990;5:222–7.
- Mani N, Sudhoff H, Rajagopal S, Moffat D, Axon PR. Cranial nerve involvement in malignant external otitis: implications for clinical outcome. *Laryngoscope*. 2007;117:907–10.
- Soudry E, Joshua BZ, Sulkes J, Nageris BI. Characteristics and prognosis of malignant external otitis with facial paralysis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2007;133:1002–4.
- Ress BD, Luntz M, Telischi FF, Balkany TJ, Whiteman ML. Necrotizing external otitis in patients with AIDS. *Laryngoscope*. 1997;107:456–60.
- Joshua BZ, Sulkes J, Raveh E, Bishara J, Nageris BI. Predicting outcome of malignant external otitis. *Otol Neurotol*. 2008;29:339–43.
- Grandis JR, Curtin HD, Yu VL. Necrotizing (malignant) external otitis: prospective comparison of CT and MR imaging in diagnosis and follow-up. *Radiology*. 1995;196:499–504.
- Ceruse P, Colleaux B, Truy E, Disant F, Morgon AH, Lahneche B. Malignant external otitis. Apropos of 7 recent cases. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac*. 1993;110:332–6.
- Franco-Vidal V, Blanchet H, Bebear C, Dutronc H, Darrouzet V. Necrotizing external otitis: a report of 46 cases. *Otol Neurotol*. 2007;28:771–3.
- Hardoff R, Gips S, Uri N, Front A, Tamir A. Semiquantitative skull planar and SPECT bone scintigraphy in diabetic patients: differentiation of necrotizing (malignant) external otitis from severe external otitis. *J Nucl Med*. 1994;35:411–5.
- Stokkel MP, Boot CN, van Eck-Smit BL. SPECT gallium scintigraphy in malignant external otitis: initial staging and follow-up. Case reports. *Laryngoscope*. 1996;106:338–40.
- Berenholz L, Katzenell U, Harell M. Evolving resistant *Pseudomonas* to ciprofloxacin in malignant otitis externa. *Laryngoscope*. 2002;112:1619–22.
- Bernstein JM, Holland NJ, Porter GC, Maw AR. Resistance of *Pseudomonas* to ciprofloxacin: implications for the treatment of malignant otitis externa. *J Laryngol Otol*. 2007;121:118–23.