

Esclerosis endoscópica con distensión neumática para el tratamiento de las fístulas del seno piriforme

G. Sanchís Blanco, C. Gutiérrez San Román, M. Bordallo Vázquez, J. Cortés Sáez, J.E. Barrios Fontoba, J. Lluna González, M.J. Esteban Ricós¹, J.J. Vila Carbó

Servicio de Cirugía Pediátrica. ¹Servicio de Radiología Pediátrica. Hospital Universitari i Politècnic La Fe, Valencia

RESUMEN

El tratamiento clásico de la fístula del seno piriforme (FSP) ha sido la exéresis quirúrgica del trayecto fistuloso, sin embargo posteriormente se han desarrollado alternativas menos invasivas que tratan de obliterar el seno. Los autores presentan una modificación técnica de la esclerosis endoscópica con diatermia (ED): aplicar un flujo de aire continuo a través del endoscopio flexible que favorece la distensión del seno piriforme y así la visualización del orificio de apertura de la fístula. Se utilizó una guía metálica y diatermia para obliterar el trayecto fistuloso. En los últimos 15 años se diagnosticaron 9 pacientes de FSP en nuestro centro. El tratamiento inicial fue antibioterapia, en algunos casos asociada al drenaje del absceso cervical. Se procedió a la fistulectomía en 4 casos y a la ED en otros 4. El noveno paciente recibió tratamiento mixto, realizando la electrocauterización tras una recidiva quirúrgica. Mientras que tres casos tratados quirúrgicamente recidivaron, ninguno tratado mediante ED lo hizo ni presentó complicaciones. En nuestra experiencia, la esclerosis endoscópica con distensión neumática es una técnica sencilla, reproducible, poco agresiva y muy efectiva, por lo que creemos que podría convertirse en la terapia de primera elección para esta patología.

PALABRAS CLAVE: Fístula del seno piriforme; Tiroiditis; Absceso cervical; Cauterización endoscópica; Esclerosis endoscópica.

ENDOSCOPIC SCLEROSIS WITH PNEUMATIC DISTENSION FOR PYRIFORM SINUS FISTULA TREATMENT

ABSTRACT

Classic treatment for pyriform sinus fistula (PSF) has been surgical excision; however, less invasive therapeutic alternatives whose aim is the obliteration of the sinus have been described subsequently. The authors present a technical modification of endoscopic sclerosis with diathermy (ESD): continuous infusion of air flow through the flexible endoscope was used to distend the pyriform sinus and facilitate recognition of the fistula opening. The sinus obliteration was performed with a wire guide and diathermy. In the last 15 years, 9 patients were diagnosed of suffering from

PSF in our institution. Initial treatment was antibiotics therapy associated in some cases to cervical abscess drainage. Fistulectomy was performed in 4 cases and ESD in 4. The ninth patient received both treatments, performing electrocauterization after a surgical recurrence. Three of the patients who underwent surgery relapsed; none treated by ESD did, or had any complications. In our experience, endoscopic sclerosis with pneumatic distension is a simple technique, reproducible, not invasive and very effective; hence we consider it might become a first line therapy for PSF.

KEY WORDS: Pyriform sinus fistula; Thyroiditis; Neck abscess; Endoscopic cauterization; Endoscopic sclerosis.

INTRODUCCIÓN

La fístula del seno piriforme (FSP) es una malformación branquial muy poco frecuente que causa abscesos laterocervicales recurrentes o episodios de tiroiditis supurada⁽¹⁾. El diagnóstico es difícil, por lo que es muy importante su sospecha clínica. La exéresis completa del trayecto fistuloso, hasta su origen en la hipofaringe, ha sido el tratamiento clásico de esta patología⁽²⁾. Sin embargo, dicha cirugía presenta riesgos al encontrarse cercanas estructuras cervicales, como el nervio recurrente laríngeo, la tráquea o la glándula tiroides, siendo a veces necesarias varias intervenciones e, incluso, resecciones tiroideas parciales. Con el objetivo de disminuir la agresión quirúrgica se han descrito técnicas endoscópicas que obliteran el seno y el trayecto fistuloso, evitando así la cervicotomía⁽³⁻⁵⁾. En este trabajo presentamos una modificación técnica de la esclerosis endoscópica con diatermia (ED) y los resultados de los casos tratados en nuestro centro.

MATERIAL Y MÉTODOS

Revisamos a los pacientes afectos de FSP en nuestro centro desde enero 1997 hasta marzo 2013, atendiendo a la edad, el sexo, la clínica de presentación, las pruebas diagnósticas empleadas, el tratamiento recibido y la evolución tras el mismo.

Correspondencia: Dra. Georgina Sanchís Blanco
E-mail: georginasb@gmail.com

Presentado como Comunicación Oral en el 52 Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica, mayo 2013

Recibido: Mayo 2013

Aceptado: Enero 2014

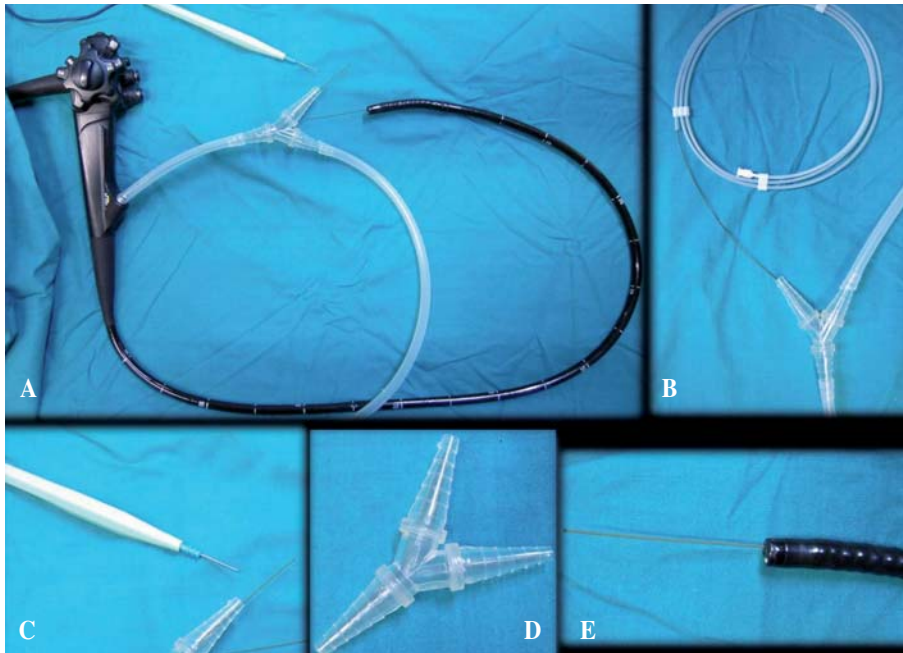


Figura 1. A) Montaje completo del endoscopio para la esclerosis con distensión neumática. B) Detalle de la guía metálica introduciéndose por el extremo libre de la conexión en Y. C) Detalle de la aplicación de diatermia sobre la guía metálica. D) Conexión en Y. E) Detalle del extremo de la guía a su salida del endoscopio.

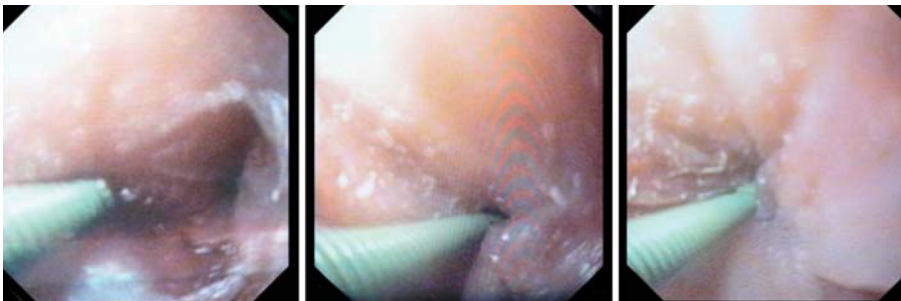


Figura 2. Canalización del orificio fistuloso con la guía metálica y diatermia hasta observar la esclerosis de la mucosa, que queda de coloración blanquecina.

La ED se realizó bajo anestesia general, colocando al paciente en decúbito supino e hiperextensión cervical. Utilizamos el endoscopio flexible (Olympus® GIF-Q165) para explorar el seno piriforme. Conectamos una fuente de aire al canal de trabajo del endoscopio mediante una tubuladura y una conexión en Y. Al insuflar aire con flujo alto hasta de 10 L, se favorece la apertura y localización del orificio fistuloso. Para la esclerosis de la FSP se utilizó una guía metálica introducida a través del extremo libre de la conexión en Y (Fig. 1). Tras canalizar la apertura del seno, se obliteró el trayecto fistuloso con diatermia, Valleylab electrosurgical unit®. Se aumentó la intensidad de forma progresiva, máximo 15, hasta observar la esclerosis de la mucosa, que adquirió coloración blanquecina (Fig. 2). Se administró profilaxis antibiótica (betalactámico) con una dosis intraoperatoria.

RESULTADOS

En los 15 años revisados se trataron 9 pacientes con FSP: 7 eran niños y 2 niñas, de edades comprendidas entre los 4 meses y los 10 años, al inicio de la clínica. La forma de presentación fue como masa/absceso cervical recurrente en

6 casos, uno de ellos asociado a distrés respiratorio, y en 3 pacientes como episodios de tiroiditis. En todos los casos la afectación fue del lado izquierdo (Tabla I).

Para el diagnóstico se realizaron ecografía y esofagograma a todos los pacientes, y se completó el estudio con una TAC o RMN según el caso. Únicamente en 3 pacientes se observó una fuga de contraste a nivel del seno piriforme durante el tránsito esofágico (Fig. 3).

El tratamiento agudo inicial en todos los casos fue antibiótico, asociado en alguno de ellos a drenaje del absceso cervical. De los 6 pacientes que debutaron con cuadros de absceso/masa cervical, 5 se abordaron quirúrgicamente mediante cervicotomía y exéresis del trayecto fistuloso. Tres de ellos recidivaron, de los cuales dos se trataron con una nueva cervicotomía asociada a tiroidectomía parcial.

Se trataron 5 pacientes mediante esclerosis endoscópica:

- Un niño de 10 años con episodios recurrentes de absceso cervical.
- Un lactante menor de 1 año con una recidiva del absceso cervical posterior al tratamiento quirúrgico.
- Dos niñas y un niño de 2, 6 y 4 años que debutaron con episodios de tiroiditis, en dos casos recidivantes.

Tabla I.

Caso	Edad*	Clínica	Diagnóstico	Tratamiento	Recidiva	Tratamiento	Recidiva
♂	3 a	Absceso cervical izquierdo	Ecografía EG (-) TAC	IQ	No	–	–
♂	3 a	Masa cervical izquierda	Ecografía EG (+) RMN	IQ	Sí	IQ (TP)	No
♂	6 a	Masa cervical izquierda	Ecografía EG (+)	I+D IQ	No	–	–
♂	10 a	Absceso cervical izquierdo	Ecografía EG (-) TAC	IQ	Sí	I+D IQ (TP)	No
♂	4 m	Masa cervical izquierda + Distrés respiratorio	Ecografía EG (-)	I+D IQ	Sí	ED	No
♂	10 a	Absceso cervical izquierdo	Ecografía EG (-) TAC	I+D ED	No	–	–
♀	2 a	Tiroiditis	Ecografía EG (-) RMN	ED	No	–	–
♂	4 a	Tiroiditis	Ecografía EG (+)	ED	No	–	–
♀	6 a	Tiroiditis	Ecografía EG (-) RMN	ED	No	–	–

*Edad al inicio de la clínica. EG: esofagograma, (+) identificación del trayecto fistuloso; I+D: incisión y drenaje; IQ: cervicotomía; TP: tiroidectomía parcial. ED: esclerosis endoscópica.

Estos 5 casos tratados con ED se resolvieron tras una sola sesión de cauterización con diatermia. No hubo ninguna complicación asociada ni presentaron recurrencias.

El seguimiento medio de los pacientes en consultas externas después del tratamiento definitivo fue de 8 meses. Hasta la fecha de hoy han transcurrido una media de 8 años (6-10 a) tras el tratamiento quirúrgico y 2,7 años (8 m-4 a) desde el tratamiento con ED. Durante este periodo no se han registrado recidivas.

DISCUSIÓN

Las FSP son remanentes del tercer o cuarto arcos branquiales, y son las menos frecuentes de este tipo de malformaciones (el 2% aproximadamente)⁽⁶⁾. Se originan en la base o el ápex del seno, y discurren hacia la glándula tiroides en un trayecto parecido al del nervio laríngeo recurrente^(7,8). Aunque se han descrito casos en el lado derecho⁽⁹⁾, existe una clara predominancia izquierda que se justifica por una asimetría en los derivados branquiales de ese lado⁽¹⁰⁾.

Clínicamente, las FSP son causa de abscesos cervicales y episodios de tiroiditis agudas recurrentes que suelen coincidir

con un cuadro de infección respiratoria previo⁽¹¹⁾. En la etapa neonatal, la masa cervical puede producir estridor o distrés respiratorio^(12,13). En los cuadros de tiroiditis aguda existe una elevación de los parámetros de infección sin alteración de los niveles hormonales⁽¹⁴⁾. Dada la resistencia a las infecciones de la glándula tiroides (por su alto contenido en yodo, abundante vascularización y cápsula fibrosa), debe sospecharse la presencia de una FSP ante un episodio de tiroiditis, sobre todo, si la afectación es izquierda^(15,16).

En cuanto al diagnóstico, la sospecha clínica de la FSP es imprescindible. El esofagograma es útil para poner de manifiesto el trayecto fistuloso, pero puede tener falsos negativos⁽¹⁰⁾. La exploración inicial suele ser la ecografía que en algunos casos, visualiza una imagen aérea en el interior de la colección abscesificada, patognomónica de la FSP⁽¹⁶⁾. Para identificar las estructuras afectadas y su relación con el trayecto fistuloso, son más útiles la TAC y la RMN. Sin embargo, la visualización directa del orificio fistuloso permeable mediante laringoscopia directa o endoscopia es definitiva⁽⁷⁾.

Para conseguir un tratamiento eficaz de la FSP es necesaria la exéresis del trayecto fistuloso o su obliteración. Durante el episodio agudo, no obstante, el tratamiento antibiótico y/o

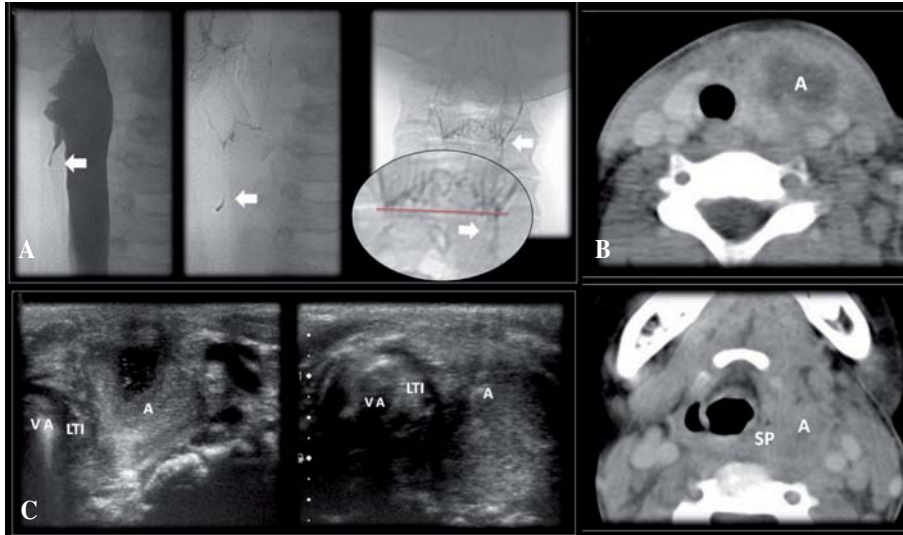


Figura 3. A) Esófagograma en el que se observa fuga a nivel del seno piriforme izquierdo (flecha). B) Corte de TAC en el que se observa absceso (A) cervical izquierdo que depende del seno piriforme (SP) por encima del lóbulo tiroideo. C) Imagen ecográfica que muestra en línea media la vía aérea (VA) y absceso cervical izquierdo (A) lateral al lóbulo tiroideo izquierdo (LTI).

drenaje resultan prioritarios. La exéresis quirúrgica de la FSP ha sido el tratamiento estándar para evitar la recurrencia⁽²⁾. Se trata de una cirugía que puede resultar dificultosa al encontrarse los tejidos inflamados y distorsionados, existiendo riesgos potenciales de complicaciones, como son la lesión de los nervios recurrente y superior laríngeos. Localizar y disecar completamente la fístula hasta su origen en la hipofaringe es todo un reto. Para facilitar la identificación de su trayecto durante la cirugía se han descrito diversas estrategias a lo largo de los años^(1,2,11): inyección de azul de metileno por el orificio fistuloso o bien la tutorización de la fístula con una guía o un catéter de fogarty. Aun así, en algunos casos son necesarias más de una intervención, incluso años después de la primera⁽¹⁷⁾, o la resección parcial del tejido tiroideo afecto para solucionar la patología⁽⁷⁾.

Como alternativa a la cirugía abierta y para evitar estos problemas además de las secuelas estéticas, se han desarrollado tratamientos endoscópicos que tienen como objetivo la obliteración de la fístula. Aunque también se ha utilizado la inyección de adhesivo de fibrina⁽⁴⁾, la electrocauterización del trayecto y la obliteración de la fístula con ácido tricloroacético (ATC) son los más ampliamente utilizados.

La cauterización química con ATC se realiza aplicando el producto mediante una gasa impregnada en la apertura del seno, de forma circunferencial. Según describen los autores, obtienen una tasa de éxito con el primer tratamiento de hasta el 77%, pudiendo repetir la aplicación del tratamiento en caso de fracaso⁽⁵⁾. Es una técnica sencilla y aparentemente inocua. Sin embargo, recientemente el mismo equipo ha publicado 2 casos de parálisis temporal de la cuerda vocal del lado ipsilateral a la FSP⁽¹⁸⁾.

En 1998, Jordan y cols. describieron la obliteración de la FSP mediante cauterización con diatermia⁽³⁾. Posteriormente, diversos trabajos confirman la efectividad del tratamiento, presentando series de casos con tasas de recurrencia menores del 20%^(19,20). Nuestra experiencia es también satisfactoria, con una tasa de éxito tras la primera esclerosis del 100%.

En la serie que describimos no se produjo ninguna complicación inmediata tras la intervención y, aunque el tiempo transcurrido desde la ED en algún paciente es todavía escaso, no ha habido ninguna recidiva en los casos tratados hasta la fecha. Algunos equipos realizan el procedimiento durante el episodio inflamatorio agudo⁽²⁰⁾. Aunque la aplicación del flujo de aire continuo durante la endoscopia favorece la apertura y visualización del orificio fistuloso del seno, nosotros preferimos realizar la ED una vez resuelta la fase inflamatoria para tener mayor efectividad. Otra ventaja del tratamiento endoscópico es que reduce la estancia hospitalaria ya que puede realizarse la ED con ingreso de corta estancia o, incluso, de forma ambulatoria reduciéndose, en consecuencia, el coste económico.

En conclusión, consideramos que la esclerosis endoscópica con diatermia y distensión neumática podría utilizarse como primera línea de tratamiento de la FSP ya que se trata de una técnica mínimamente invasiva, con muy buenos resultados y que, además de reducir el riesgo de lesión de las estructuras vecinas, puede realizarse de forma ambulatoria. En caso de recurrencia tras la ED, es posible repetir el tratamiento endoscópico y valorar la exéresis quirúrgica como segunda línea terapéutica.

BIBLIOGRAFÍA

1. Pereira KD, Losh GG, Oliver D, Poole MD. Management of anomalies of the third and fourth branchial pouches. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2004; 68: 43-50.
2. Kubota M, Suita S, Kamimura T, Zaizen Y. Surgical strategy for the treatment of pyriform sinus fistula. *J Pediatr Surg.* 1997; 1: 34-7.
3. Jordan JA, Graves JE, Manning SC, McClay JE, Biavati MJ. Endoscopic cauterization for treatment of fourth branchial cleft sinuses. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1998; 124: 1021-4.
4. Cigliano B, Cipolleta L, Baltogiannis N, Esposito C, Settini A. Endoscopic fibrin glue sealin of congenital pyriform sinus fistula. *Surg Endosc.* 2004; 18: 554-6.

5. Cha W, Cho SW, Hah JH, Kwon TK, Sung MW, Kim KH. Chemocauterization of the internal opening with trichloroacetic acid as first-line treatment for pyriform sinus fistula. *Head Neck*. 2013; 35: 431-5.
6. Choi SS, Zalzal GH. Branchial anomalies: a review of 52 cases. *Laryngoscope*. 1995; 105: 909-13.
7. Nicoucar K, Giger R, Pope HG, Jaecklin T, Dulguerov P. Management of congenital fourth branchial arch anomalies: a review and analysis of published cases. *J Pediatr Surg*. 2009; 44: 1432-9.
8. Mali VP, Prabhakaran K. Recurrent acute thyroid swellings because of pyriform sinus fistula. *J Pediatr Surg*. 2008; 43: E27-30.
9. Cain RB, Kasznica P, Brundage WJ. Right-sided pyriform sinus fistula: a case report and review of the literature. *Case Report Otolaryngol*. 2012; 2012: 934968. Epub 2012.
10. Seki N, Himi T. Retrospective review of 13 cases of pyriform sinus fistula. *Am J Otolaryngol* 2007; 28:55-8.
11. Liberman M, Kay S, Emil S, Flageole H, Nguyen LT, Tewfik TL, et al. Ten years of experience with third and fourth branchial remnants. *J Pediatr Surg*. 2002; 37: 685-90.
12. Amano H, Uchida H, Sato K, Kawashima H, Tanaka Y, Takazawa S, et al. Differences in the characteristics and management of pyriform sinus fistula between neonates and Young children. *Pediatr Surg Int*. 2012; 28: 15-20.
13. Chin AC, Radhakrishnan J, Slatton D, Geisser G. Congenital cysts of the third and fourth pharyngeal pouches or pyriform sinus cysts. *J Pediatr Surg*. 2000; 35: 1252-5.
14. Dean RL, Donovan T. Bilateral pyriform sinus fistulas presenting as recurrent suppurative thyroiditis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006; 134:173-4.
15. Orti A, Martin R, Gregori P, Otero MC, Pérez-Tamarit D, Carles C, et al. Pyriform fistulae: diagnosis and management. *Clin Pediatr*. 2003; 42: 463-6.
16. Mukerji SS, Parmar H, Ibrahim M, Bradford C. An unusual cause of recurrent pediatric neck abscess: pyriform sinus fistula. *Clinical Imaging*. 2007; 31: 349-51.
17. Fernández Córdoba MS, González Piñera J, Hernández Anselmi E, Ruiz Cano R. Tiroiditis agudas y abscesos cervicales como manifestaciones de las fístulas del seno piriforme. *Cir Pediatr* 2009;22:157-61.
18. Park JH, Jung YH, Sung MW, Kim KH. Temporary vocal fold immobility after chemocauterization of the pyriform sinus fistula opening with trichloroacetic acid. *Laryngoscope*. 2013; 123: 410-3.
19. Chen EY, Inglis AF, Ou H, Perkins JA, Sie KCY, Chiara J, et al. Endoscopic electrocauterization of pyriform fossa sinus tracts as definitive treatment. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009; 73: 1151-6.
20. Verret DJ, McClay J, Murray A, Biavati M, Brown O. Endoscopic cauterization of fourth branchial cleft sinus tracts. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2004; 130: 465-8.