



CASO CLÍNICO

Presentación infrecuente de síndrome de Frey bilateral, tratado con toxina botulínica[☆]



CrossMark

M. Avellanet^{a,*}, E. Gea^b, J.C. Perrot^a e I. Lopez^a

^a Servicio de Rehabilitación, Hospital Nostra Sra. de Meritxell, Escaldes-Engordany, Andorra

^b Servicio de Farmacia, Hospital Nostra Sra. de Meritxell, de Meritxell, Escaldes-Engordany, Andorra

Recibido el 14 de agosto de 2015; aceptado el 13 de enero de 2016

Disponible en Internet el 8 de marzo de 2016

PALABRAS CLAVE

Síndrome de Frey;
Toxina botulínica;
Test de Minor

Resumen El síndrome de Frey o síndrome auriculotemporal, incluye sudoración facial al estímulo gustatorio, más frecuentemente después de cirugía de la glándula parótida. Describimos el caso de un síndrome de Frey bilateral, después de una cirugía unilateral de la glándula parótida, y su tratamiento exitoso con toxina botulínica tipo A. Se trata de una mujer de 54 años de edad, remitida para tratamiento a nuestro servicio de rehabilitación por referir sudoración en la mejilla durante la masticación, 2 años después de cirugía de la glándula parótida. En la valoración con el test de yodo/almidón, se observó un área de sudoración en ambas mejillas, mayor en la homolateral a la cirugía. Ambas áreas fueron tratadas con toxina botulínica, 50 unidades en cada una con un total de 100 unidades reconstituidas en 2 ml de solución salina estéril. A los 6 meses y al año de seguimiento, la paciente sigue asintomática. Nuestra paciente presentaba una forma inusual de síndrome de Frey y fue tratada con éxito con toxina botulínica. No hemos encontrado casos similares en la literatura de aparición en la edad adulta. La patofisiología del síndrome queda todavía por esclarecer.

© 2016 Elsevier España, S.L.U. y SERMEF. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Frey syndrome;
Botulinum toxin;
Minor's test

An unusual presentation of bilateral Frey syndrome treated with botulinum toxin

Abstract Frey syndrome, also known as auriculotemporal syndrome, includes facial gustatory sweating, mainly after surgery of the parotid gland. We describe a case of bilateral Frey syndrome after unilateral surgery and its subsequent successful treatment with type A botulinum toxin. A 54-year-old woman was referred for treatment to our physical medicine and rehabilitation department 2 years after parotid gland surgery complaining of sweating while eating in her ipsilateral cheek. When the affected area was assessed with the iodine and starch test, a hyperhydrotic area was revealed in both cheeks, which was greater in the ipsilateral cheek

[☆] Presentado en el 9th World Congress of the ISPRM, Berlín 2015.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: mavellanet@saas.ad (M. Avellanet).

to surgery. Both areas were treated with botulinum toxin, 50 units in each, with a total of 100 units reconstituted with 2 ml sterile saline solution. Injections were performed following recommended protocols every 1 cm². At 6 months and 1 year of follow up, the patient was asymptomatic. Our patient had an unusual form of Frey syndrome and was successfully treated with botulinum toxin. To the best of our knowledge, this is the first reported case of bilateral Frey syndrome beginning in adulthood. Further research is warranted to clarify the pathophysiology of this syndrome.

© 2016 Elsevier España, S.L.U. and SERMEF. All rights reserved.

Introducción

El síndrome de Frey o síndrome auriculotemporal incluye trastornos sudoríparos y vasomotores faciales durante la masticación¹. Se trata de un diagnóstico clínico, de sospecha después de cirugía de la glándula parótida, aunque puede ser congénito o adquirido. Describimos el caso de una presentación bilateral de síndrome de Frey después de una cirugía unilateral, así como su tratamiento exitoso con toxina botulínica.

Caso clínico

Se trata de una mujer de 54 años de edad, remitida a nuestro servicio por otorrinolaringología. Dos años antes había sido sometida a cirugía de la glándula parótida derecha, a causa de una tumoración benigna, sin complicaciones postoperatorias. Desde hacía unos meses, la paciente refería sudoración profusa durante la masticación en la mejilla homolateral.

Para su diagnóstico, valoración y tratamiento se realizó un test de iodo/almidón (test de Minor). Este test consiste en la aplicación de una solución de alcohol yodado sobre la superficie de la piel afectada. El contenido alcohólico de la solución favorece el rápido secado. Posteriormente se espolvorea con almidón, retirándose el excedente con una brocha o algodón. Se le solicita, a la paciente, que mastique un chicle (u otro alimento sólido) como estímulo para reproducir la sintomatología. Tras la estimulación gustativa, la sudoración queda atrapada en el almidón, tiñéndose de color morado o negro. Esta coloración pone de manifiesto las áreas afectadas, y permite la localización exacta de la zona a tratar.

En este caso, y a pesar de que la paciente solo se quejaba de la mejilla derecha, homolateral a la cirugía, la realización del test de Minor permitió revelar 2 áreas hiperhidróticas en mejilla y mandibular izquierdas. La sudoración se observó en ambas mejillas, aunque superior en la ipsilateral a la cirugía (fig. 1).

Estas áreas se trataron con toxina botulínica tipo A, previa obtención de un consentimiento informado. Se reconstituyeron 100 unidades con 2 ml de solución salina estéril, infiltrando de manera intradérmica cada 1 cm², 50 unidades por zona siguiendo los protocolos recomendados (fig. 2). No se produjeron efectos adversos.

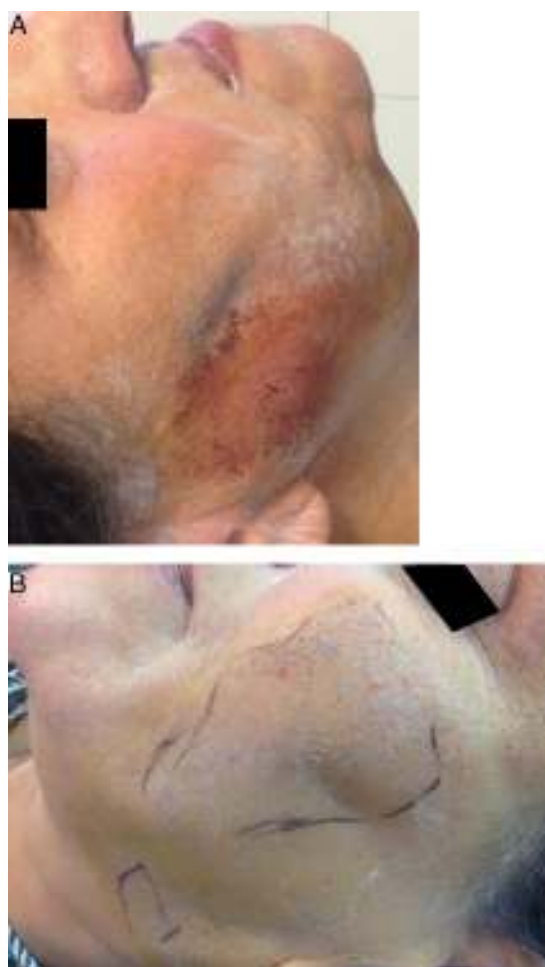


Figura 1 Test de Minor: A) Lado derecho homolateral a cirugía. B) Lado izquierdo.

Al seguimiento a los 6 meses y al año, la paciente permanecía asintomática, con un alto grado de satisfacción.

Discusión

El síndrome de Frey Baillarger o síndrome de la *chorda tympanica* lleva el nombre de Lucja Frey, que lo describió en 1923 en un artículo que continúa siendo de referencia, más



Figura 2 Tratamiento con infiltración de la toxina botulínica.

de 90 años después de su publicación¹. Esta neuróloga, que desapareció en el gueto de Varsovia hacia 1942, describió el caso de un soldado polaco, que había sufrido una herida superficial de bala en el ángulo mandibular inferior con inflamación severa de la mejilla, que duró más de 4 semanas, y desarrolló una fístula en el conducto auditivo externo. A los pocos meses, el paciente presentaba hiperestesia de la zona cutánea inervada por el nervio auriculotemporal, sudoración profusa de la zona con emociones o con la masticación de alimentos (no ocurre simplemente con movimientos masticatorios) y eritema con aumento de la temperatura cutánea. Esta entidad es relativamente frecuente tras la presencia de una lesión parotídea, ya sea de tipo quirúrgico, traumático, infeccioso o tumoral. Entre los pacientes sometidos a parotidectomía, su incidencia varía del 12,2² al 23,5%³ según las series, sobre todo durante el primer año después de la cirugía. Se han descrito recientemente casos después de una luxación temporomandibular⁴ y en cirugía submandibular, con aparición de los síntomas a nivel cervical⁵. No solo se han descrito casos en edad adulta, sino también en la pediátrica, siendo el antecedente del uso de fórceps en dichos pacientes el más común, y el inicio de los síntomas durante el primer año de vida⁶. En estos pacientes en edad pediátrica, los síntomas bilaterales se han descrito en diversas ocasiones. Sin embargo, en edad adulta y con una causa unilateral, los síntomas son unilaterales. En nuestro caso, los síntomas aparecen de manera bilateral a pesar de ser el antecedente de cirugía unilateral.

Respecto a la patofisiología, L. Frey en su publicación inicial se refiere a casos previos publicados por Baillarger en 1853 y Bergounhioux en 1888 de sudoración profusa facial, y en hemicuerpo con la ingesta en casos de infección y supuración de la glándula parótida¹. Baillarger hipotetizó que la secreción era de saliva y Bergounhioux demostró por su pH, que se trataba de sudoración. La Dra. Frey subrayaba la importancia del sistema vegetativo, y de la «irritación por proximidad» de fibras adyacentes, ya que el paciente presentaba, además de sudoración, piloerección cervical, consideración que continúa siendo vigente en la actualidad en muchas otras enfermedades. Su hipótesis se basaba en una irritación latente de las fibras vegetativas, siendo el estímulo gustativo el que desencadena el reflejo de sudoración. Este sería el motivo por el que los movimientos masticatorios no provocan sudoración, sino el estímulo de

los receptores gustativos durante la masticación de alimentos.

Aunque la fisiopatología se desconoce exactamente, algunos autores hipotetizan sobre una regeneración aberrante de las fibras parasimpáticas posganglionares⁵. Se explicaría en base no solo a la lesión del nervio auriculotemporal y una subsiguiente reinervación de las glándulas sudoríparas por fibras parasimpáticas (salivares), sino también por alguna forma de excitación transaxonal de fibras adyacentes o del ganglio, como ya apuntaba L. Frey^{1,4}.

La toxina botulínica tipo A se ha mostrado efectiva en el tratamiento del síndrome de Frey. Se trata de una neurotoxina con un mecanismo de acción intracelular que bloquea la proteína *Synaptosomal-associated protein 25* (SNAP), esencial para la exocitosis de las vesículas de acetilcolina. Los efectos secundarios referenciados son leves y locales como las reacciones cutáneas, y raramente puede ocurrir disfagia pasajera por difusión a los músculos faríngeos^{5,7,8}. En el caso que describimos, el tratamiento fue eficaz, bien tolerado y duradero, si bien en algunos casos descritos se han precisado tratamientos repetidos⁸.

Conclusión

El síndrome de Frey bilateral es una presentación inusual del síndrome auriculotemporal. El tratamiento sintomático con toxina botulínica tipo A se ha mostrado eficaz a largo plazo, y sin efectos secundarios. La patofisiología de este síndrome queda todavía por esclarecer.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Frey L. Le syndrome du nerf auriculo-temporal. *Rev Neurol.* 1923;2:97-104.
2. Mohammed F, Asaria J, Payne RJ, Freeman JL. Retrospective review of 242 consecutive patients treated surgically for parotid gland tumors. *J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2008;37:340-6.
3. Rustemeyer J, Eufinger H, Bremerich A. The incidence of Frey's syndrome. *J Craniomaxillofac Surg.* 2008;36:34-7.

4. Kamath RAD, Bharani S, Prabhakar S. Frey's syndrome consequent to an unusual pattern of temporomandibular joint dislocation: Case report with review of its incidence and etiology. *Craniomaxillofacial Trauma Reconstruct*. 2013;6: 1–8.
5. Philouze P, Vertu D, Ceruse P. Bilateral gustatory sweating in the submandibular region after bilateral neck dissection successfully treated with botulinum toxin. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2014;52:761–3.
6. Martínez-Baylacha J, Aragón T, Galdós H, Herrera C, Rubio de Abajo I. Síndrome de Frey secundario a traumatismo obstétrico. Presentación de 2 casos. *An Pediatr (Barc)*. 2010;72:272–7.
7. Wang CC, Wang CP. Preliminary experience with botulinum toxin type A intracutaneous injection for Frey's syndrome. *J Chin Med Assoc*. 2005;68:463–7.
8. de Bree R, Duyndam JE, Kuik DJ, Leemans CR. Repeated botulinum toxin type A injections to treat patients with Frey syndrome. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2009;135:287–90.