

# Adenoma de oído medio: nuestra casuística y revisión de la literatura

J.A. Márquez Moyano\*, R. Ortega Salas\*\*, A. Romero Ortiz\*\*, R. Sánchez Gutiérrez\*\*\*, P. Ostos Aumente\*\*\*, J. Roldán Nogueras\*\*\*, P. López Villarejo\*\*\*

\*Unidad de Otorrinolaringología. Hospital de Montilla. Córdoba. \*\*Servicio de Anatomía Patológica. \*\*\*Servicio de Otorrinolaringología. Hospital Universitario Reina Sofía. Córdoba.

**Resumen:** Los tumores del oído medio son poco habituales, siendo el de mayor frecuencia el glomus timpánico seguido en mucha menor frecuencia por el adenoma de oído medio (AOM). Es una entidad que se presenta de forma insidiosa, con unos hallazgos clínicos y audiológicos muy inespecíficos, a cuyo diagnóstico de certeza han contribuido de forma importante los avances en histología e inmunohistoquímica. Presentamos dos casos diagnosticados recientemente en nuestro centro, en un hombre y una mujer ambos de mediana edad. Los dos pacientes fueron tratados mediante cirugía y permanecen sin signos de recidiva después de 27 y 28 meses de seguimiento. En ambos casos se llegó al diagnóstico definitivo mediante el análisis histológico e inmunohistoquímico.

**Palabras clave:** Adenoma. Oído medio. Neuroendocrino. Glandular.

## *Middle ear adenoma: our casuistry and revision of the literature*

**Abstract:** Tumours of the middle ear are rare. Among them glomus tympanicum is the most frequent, followed by adenoma of the middle ear (AME). This insidious pathology entity displays unspecific clinical and audiological features. Advances in histology and immunohistochemistry have greatly contributed to an accurate diagnosis. We report our experience with two patients, a middle-aged man and a woman, diagnosed in our hospital. Both patients underwent surgical treatment and have shown no signs of recurrence after a 27- and 28-month follow-up. In both cases an accurate diagnosis was confirmed by histological and immunohistochemical analysis.

**Key words:** Adenoma. Middle ear. Neuroendocrine. Glandular.

## INTRODUCCIÓN

Los tumores del oído medio son poco habituales, siendo el de mayor frecuencia el glomus timpánico seguido en mucha menor frecuencia por el adenoma de oído medio (AOM)<sup>1,2</sup>, entidad recientemente descrita (Derlaky y Barney, 1976)<sup>15</sup>. Arnold y cols. (1996) publicaron una revisión de la literatura en la que hallaron 100 casos<sup>11</sup>.

Presentamos dos casos diagnosticados y tratados recientemente en nuestro centro.

## CASOS CLÍNICOS

### Caso 1

Mujer de 53 años que consulta por hipoacusia progresiva de oído derecho y acúfeno ocasional. La otoscopia muestra una masa retrotempánica posterior, de apariencia blanquecina. En la audiometría se aprecia una hipoacusia de transmisión. En el estudio radiológico mediante Tomografía Computarizada (TC) destaca una ocupación parcial del oído medio en el mesotimpánico, lateral a la articulación incudomaleolar (Figura 1.a). Se procede a timpanotomía exploradora, que revela una masa amarillenta con origen aparente en la capa endotelial de la membrana timpánica, adyacente al mango del martillo. Se realiza aticotomía para lograr una exposición completa de la lesión. La reconstrucción se lleva a cabo mediante antroexclusión con cartílago e injerto de pericondrio de trago. Tras 28 meses de seguimiento no se aprecia recidiva.

### Caso 2

Varón de 50 años con hipoacusia progresiva de oído izquierdo, acúfenos y otalgia ocasional. En la otoscopia se aprecia como una masa blanquecina ocupa el oído medio abombando la membrana timpánica. La audiometría muestra una hipoacusia de transmisión. La TC evidencia una masa de densidad de partes blandas que ocupa todo el oído medio, englobando la cadena de huesecillos, que crece hacia la región atical y llega al antro mastoideo (Figura 1.b). El

Correspondencia: Juan Andrés Márquez Moyano

C/Río Genil, 9 - 2ºD

14900 Lucena (Córdoba)

E-mail: marquezmoyano@terra.es

Fecha de recepción: 17-1-2005

Fecha de aceptación: 13-4-2005

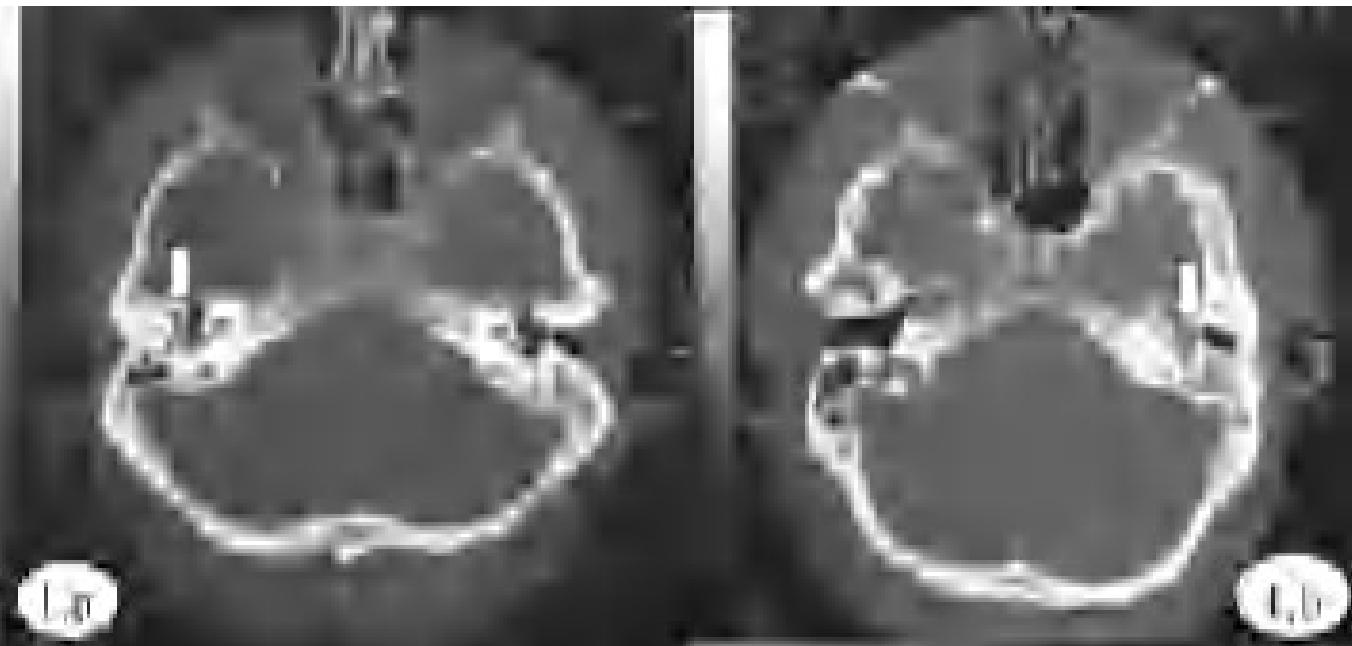


Figura 1. Tomografía Axial Computarizada. Figura 1a. TAC caso 1: en oído derecho se aprecia una ocupación parcial por material con densidad de partes blandas lateral a articulación incudomaleolar. Figura 1b. TAC caso 2: masa con densidad de partes blandas que ocupa la totalidad del oído medio englobando la cadena de huesecillos. Crece hacia la región atical y llega al antro mastoideo.

paciente fue tratado mediante una mastoidectomía, identificando una masa amarillenta que ocupaba todo el oído medio, con origen aparente en el promontorio. La reconstrucción se llevó a cabo mediante una timpanoplastia tipo III de Wullstein (modificada), técnica abierta. Tras 27 meses de seguimiento no presenta signos de recidiva.

En ambos casos el diagnóstico definitivo se hizo mediante el análisis histológico e inmunohistoquímico de la pieza quirúrgica, que mostraba un tejido formado por estroma fibroso y nidos celulares en forma de cordones alternando con áreas trabeculares y glandulares (Figura 2.a); en estas últimas, se observó la presencia de secreción intraluminal de mucinas pas positivas (Figura 2.b) como expresión de la diferenciación mucinosa. Estas células fueron fuertemente positivas a anticuerpos ANTI-queratina Y ANTI-vimentina; la positividad de algunas células a los anticuerpos anti-enolasa neuroespecífica (Figura 2.c) confirman la diferenciación neuroendocrina de estos tumores.

## DISCUSIÓN

Los tumores del oído medio se clasifican en tres grupos dependiendo de su origen: tumores secundarios (ceruminomas del CAE y metástasis), tumores salivales (por metaplasia o alteraciones del desarrollo del segundo arco branquial) y tumores adenomatosos. Dentro de este grupo, que incluye tumores de crecimiento lento y habitualmente benignos, se encuadra el AOM y también como variante maligna el adenocarcinoma, que si bien no presenta grandes diferencias histológicas, conlleva destrucción ósea, parálisis facial ocasional y otorrea crónica<sup>2,3,5</sup>.

Citológicamente, en el AOM, se identifican dos tipos celulares; ambos son de células pequeñas, redondeadas, sin mitosis ni núcleos atípicos. Las "células tipo A" son exocrinas, con gránulos mucosos en su polo apical. Son reactivas a Ac antikeratina y anti-antígenos de membrana epitelial. Las "células tipo B" son endocrinas, con gránulos neuroendocrinos en su polo basal. Son positivas a Ac antikeratina, antivimentina, antienolasa neuroespecífica y anti-VIP<sup>3,7,8</sup>.

Arquitecturalmente pueden presentar 3 patrones histológicos: glandular con secreción intraluminal de mucinas, trabecular, en cordones celulares compactos y papilar. Este último es el más raro y los dos primeros se suelen asociar<sup>13,14</sup>.

Topográficamente suelen asentarse en hipotímpano y promontorio, aunque han sido descritos igualmente en epítímpano<sup>9,16</sup>.

Clínicamente se presentan con hipoacusia y acúfeno ocasional, sin historia de patología otológica previa. No presenta predominio por sexos y su rango de distribución por edades es muy heterogéneo. La imagen otoscópica muestra una masa retrotimpanica, habitualmente a tímpano íntegro, aunque a veces sale al CAE. En el oído afectado la acústica muestra un Rinne positivo, y la audiometría confirma la hipoacusia de transmisión. El estudio mediante TAC evidencia una masa en oído medio sin erosión ósea<sup>9,10</sup>.

En el diagnóstico diferencial, además de los citados tumores del oído medio, entrarán el paraganglioma y el tumor carcinoide. El glomus timpánico presenta un estroma altamente vascularizado y un patrón de crecimiento celular en nidos, sin componente neuroendocrino. Respecto al tumor carcinoide, presenta una arquitectura celular similar al

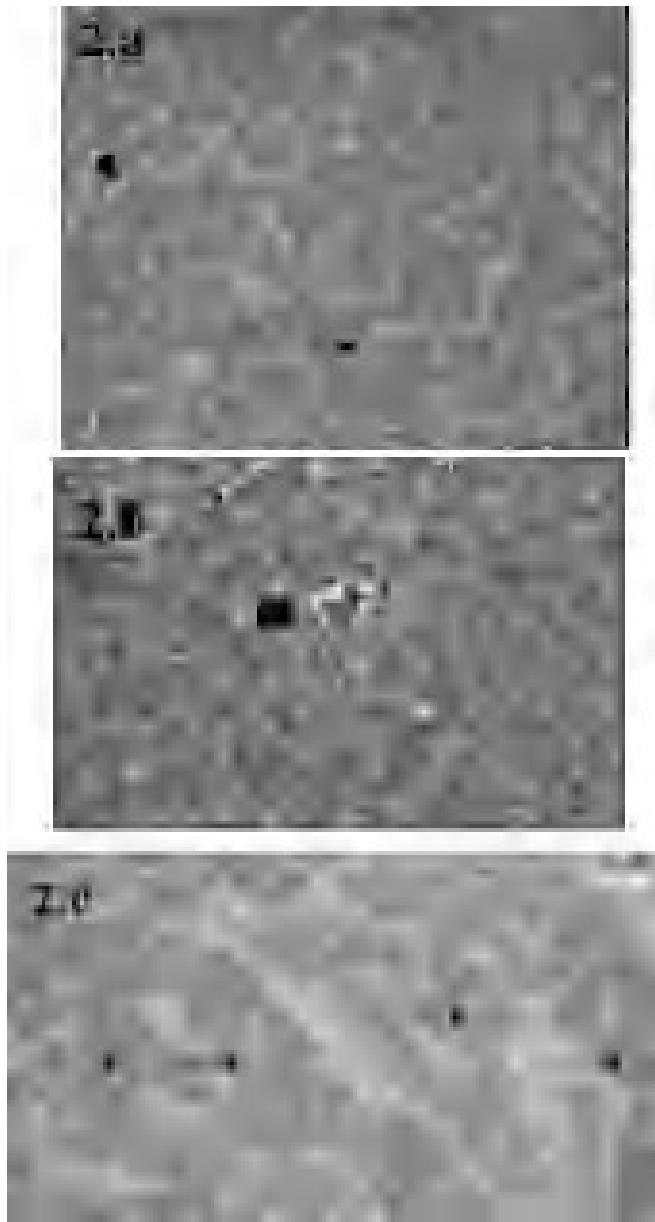


Figura 2. Análisis histopatológico. Figura 2a. Histopatología: H-E (20x): formaciones trabeculares (flecha delgada) y glandulares (flecha gruesa). Figura 2b. Histopatología; PAS (40x): secreción intraluminal positiva. Figura 2c. Histopatología; anti-enolasa neuroespecífica (20x): positividad citoplasmática en abundantes grupos celulares.

AOM, con predominio en la diferenciación neuroendocrina. Es por ello que hasta el desarrollo de las técnicas actuales de inmunohistoquímica muchos AOM hayan sido clasificados como carcinoides<sup>4,7,8</sup>.

El tratamiento curativo es la cirugía, debiendo ser lo más completa posible en el sentido de no dejar restos, debi-

do al alto índice de recurrencias. La radioterapia no se ha mostrado efectiva<sup>2,3,12</sup>.

## CONCLUSIONES

El AOM es una entidad patológica de baja prevalencia. La clínica, así como la imagen otoscópica y radiológica son muy inespecíficas.

El análisis histológico e inmunohistoquímico tras la resección quirúrgica darán el diagnóstico de certeza, así como el diagnóstico diferencial con otros tumores del oído medio.

El tratamiento de elección es la cirugía, si bien las recurrencias son frecuentes.

## Referencias

- da Luz Martins M, Boutin P, Bozorg-Grayeli A, Cazals-Hatem D, Bouccara D, Sterkers O. Middle ear adenoma: report of two cases and review of the literature. Ann Otolaryngol Chir Cervicofac 2002; 119:337-40.
- Aquino BF, Chandra RK, Haines GK, Micco AG. Neuroendocrine adenoma of the middle ear. Otolaryngol Head Neck Surg 2002;127: 477-9.
- Ayache S, Braccini F, Fernandes M, Homassin JM. Adenoma of the middle ear: a rare and misleading lesion. Otol Neurotol 2002; 23:988-91.
- Ketabchi S, Massi D, Franchi A, Vannucchi P, Santucci M. Middle ear adenoma is an amorphous tumor: why call it adenoma? Ultrastruct Pathol 2001;25:73-8.
- Jones SE, Yung MW, Orrell JM, Norris A. Adenoma in the middle ear: a report of two cases. J Laryngol Otol 2001;115:216-9.
- Maintz D, Stupp C, Krueger K, Wustrow J, Lackner K. MRI and CT of adenomatous tumours of the middle ear. Neuroradiology 2001; 43:58-61.
- Friedmann I. Middle ear adenoma. Histopathology 1998;32:279-80.
- Ribe A, Fernandez PL, Ostertarg H, Claros P, Bombi JA, Palacin A, Cardesa A. Middle-ear adenoma (MEA): a report of two cases, one with predominant "plasmacytoid" features. Histopathology 1997; 30:359-64.
- Holness RO, Sangalang VE, Huestis WS. Aggressive papillary middle ear tumors: a report of two cases with review of the literature. Neurosurgery 1996;38:849.
- Ho VT, Rao VM, Mikaelian DO. CT of adenomas of the middle ear and mastoid cavity. J Comput Assist Tomogr 1996;20:219-20.
- Arnold B, Zietz C, Muller-Hocker J, Wustrow TP. Adenoma of the middle ear mucosa. Eur Arch Otorhinolaryngol 1996;253:65-8.
- Hardingham M. Adenoma of the middle ear. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1995;121:342-4.
- Wassef M, Kanavaros P, Polivka M, Nemeth J, Monteil JP, Frachet B, et al. Middle ear adenoma. A tumor displaying mucinous and neuroendocrine differentiation. Am J Surg Pathol 1989;13:838-847.
- McNutt MA, Bolen JW. Adenomatous tumor of the middle ear. An ultrastructural and Immunocytological Study. Am J Clin Pathol 1985;84:541-547.
- Derlaki EL, Barney PL. Adenomatous tumors of the middle ear and mastoid. Laryngoscope 1976;86:1123-35.
- Hyams VJ, Mickael L. Benign adenomatous neoplasm (adenoma) of the middle ear. Clin Otolaryngol 1976;1:17-26.