



<https://doi.org/10.24245/aorl.v66i4.5848>

Osteomielitis de la base del cráneo central, un diagnóstico complejo

Central skull osteomyelitis, a complex diagnosis.

Ramón Antonio Horcasitas-Pous,¹ Eric de Jesús Montes-Olave,³ Karla Karina Aguirre-González,² Iván Hermann Schobert-Capetillo⁴

Resumen

ANTECEDENTES: La osteomielitis de la base del cráneo central es una complicación inusual de la otitis externa maligna u otitis externa necrotizante, que resulta en la destrucción de la base del cráneo. Las imágenes pueden malinterpretarse como una neoplasia maligna, por eso es tan importante tener en consideración este diagnóstico, tanto clínico como radiológico, apoyarse en la biopsia y cultivo e intentar evitar el tratamiento quirúrgico agresivo y extenso de esta área por el riesgo que conlleva.

CASOS CLÍNICOS: Se comunican los hallazgos de la tomografía, resonancia y gammagrafía con Tc99, así como los resultados de la biopsia-cultivo endoscópico de la lesión en la nasofaringe en dos casos y biopsia-cultivo microscópico del oído en uno de ellos.

CONCLUSIONES: La osteomielitis de la base del cráneo central generalmente afecta a hombres de más de 50 años, su inicio es con cefalea y afección a nervios craneales de predominio bajos.

PALABRAS CLAVE: Osteomielitis; otitis externa maligna; otitis media; base del cráneo.

Abstract

BACKGROUND: Central skull osteomyelitis is a rare, life-threatening complication of necrotizing or malignant external otitis, which results in destruction of the skull base. The imaging appearances can be misinterpreted as a malignancy, so it is important the consideration of this diagnosis, both radiologically and clinically, supported by the biopsy and culture trying to avoid the extended and aggressive surgical treatment because of their risks.

CLINICAL CASES: This paper reports the findings of the CT scan, MRI and nuclear scan with Tc99, also we did an endoscopic biopsy and culture of the nasopharynx and adjacent tissue in two cases and a microscopic biopsy and culture of the ear in one of them.

CONCLUSIONS: Osteomyelitis of the central skull base generally affects men over 50 years of age, its onset is with headache and predominantly lower cranial nerves.

KEYWORDS: Osteomyelitis; Malignant external otitis; Otitis media; Skull base.

¹ Servicio de Otorrinolaringología.

² R4 Imagenología.

Hospital Ángeles Chihuahua, Chihuahua, México.

³ R6 Otorlogía y Neurología.

⁴ Servicio de Audición y Equilibrio.

Instituto Nacional de Rehabilitación Luis Guillermo Ibarra Ibarra, Ciudad de México.

Recibido: 17 de junio 2021

Aceptado: 9 de noviembre 2021

Correspondencia

Ramón Antonio Horcasitas Pous
drhorcasitas@yahoo.com

Este artículo debe citarse como: Horcasitas-Pous RA, Montes-Olave EJ, Aguirre-González KK, Schobert-Capetillo IH. Osteomielitis de la base del cráneo central, un diagnóstico complejo. An Orl Mex. 2021; 66 (4): 380-388.



ANTECEDENTES

Esta enfermedad fue descrita por primera vez por Meltzer y Kelemen en 1959, la osteomielitis de la base del cráneo central es una afección rara pero muy grave. Hay que recordar que la base del cráneo central está constituida por el hueso temporal, esfenoides y el occipital, esta enfermedad es más frecuente en diabéticos, inmunodeprimidos o ancianos. Hay tres tipos de osteomielitis de la base del cráneo central según su origen: 1. Otitis externa necrotizante que se extiende a la base del cráneo central por los canales de Santorini. 2. Osteomielitis de la base del cráneo central con una otitis externa necrotizante resuelta. 3. Osteomielitis de la base del cráneo central como manifestación primaria y este tipo es el más complicado de diagnosticar.¹

La manifestación clínica más frecuente en estos pacientes es la cefalea intensa que puede ocurrir en un lado o en toda la cabeza. Puede haber otalgia, otorrea o ambas al principio, inicia con una parálisis facial cuando es lateral y se van sumando pares craneales, como el VI, y si esto sigue avanzando se suman los pares bajos IX, X y XI en algunas ocasiones; como no tiene relación lateral u otogénica, los pares bajos son los primeros afectados (IX, X, XI), cuya salida es por el foramen yugular y se le denomina síndrome de Vernet, si se agrega el hipogloso por afección del canal hipogloso se le denomina síndrome de Collet-Sicard.² En algunos casos puede haber daño intracraneal debido a la extensión de la infección a través de sincondrosis petroclival y llegar a generar meningitis, cerebritis, empiema intracerebral o trombosis del seno cavernoso, estas complicaciones están relacionadas directamente con la mortalidad de los pacientes.

Los microorganismos relacionados con esta enfermedad son *Pseudomonas aeruginosa* y *Staphylococcus aureus* y en los últimos años se ha encontrado con relativa frecuencia una infección

micótica asociada con *Aspergillus fumigatus*. La inflamación se va diseminando por medio de granulomas y microabscesos en la parte ósea y en el tejido blando adyacente, generando destrucción de los tejidos adyacentes.³

Es difícil establecer el diagnóstico de las lesiones en la base del cráneo mediante estudios de imagen, en algunas ocasiones se requiere una biopsia para determinar el diagnóstico; asimismo, puede hacerse una tomografía de emisión de positrones o una tomografía de emisión de fotones (SPECT) con indio-111 como radioisótopo para estudios de leucocitos en el área afectada.⁴ El estudio con tecnecio 99-MDP tiene alta sensibilidad para osteomielitis con intervalo entre el 75 y el 100%, por lo que se considera el más útil para el diagnóstico, el SPECT con galio 67, por otro lado, tiene sensibilidad más baja (67-70%), pero especificidad más alta (92%), sobre todo para identificar infección activa y pus, por lo que se recomienda como estudio de seguimiento. El estudio de tecnecio99-ubiquidina tiene sensibilidad del 73.6% y especificidad del 100% y puede tener utilidad para diagnóstico y para seguimiento. La sensibilidad de la resonancia magnética varía entre un 82 y 100% y la especificidad entre un 75 y 96%,⁵ puede mostrar imágenes que pudieran simular una neoplasia nasofaríngea, por lo que la secuencia de difusión puede ser la más útil para el diagnóstico diferencial.⁶

Hay que recordar los factores predisponentes en estos pacientes, la diabetes mellitus es la principal, inmunosupresión por enfermedades autoinmunitarias, cáncer o la administración de esteroides orales durante un lapso prolongado; la edad es otro factor determinante, ya que afecta generalmente a mayores de 50 años; entre un 18 y 36% de los pacientes tienen el antecedente de alguna cirugía de cabeza y cuello en el año previo y el 10% un procedimiento dental como posible detonante.⁷ En la actualidad tiene morta-

alidad general de un 10%, llega hasta el 25% en pacientes con comorbilidades; mientras que las secuelas neurológicas ocurren hasta en el 30% de los pacientes.⁸

El tratamiento debe tener como piedra angular la administración de antibióticos por tiempo prolongado, siempre dirigido por cultivo y antibiograma.⁹ La duración del tratamiento intravenoso y manejo hospitalario depende de la respuesta clínica del paciente y el control de las comorbilidades, se reporta en general entre 7 y 83 días con media de alrededor de 30; el tratamiento ambulatorio debe llevarse a cabo por lo menos durante 6 semanas hasta 6 meses, con base en el seguimiento clínico y radiológico.¹⁰ Las indicaciones de cirugía son: obtención de biopsia y cultivo, desbridamiento de tejido necrótico y sequestrados óseos, drenaje de abscesos, manejo de complicaciones intracraneales, descompresión nerviosa, necesidad de drenaje de los senos paranasales y necesidad de estabilización ósea; en el marco de una evolución clínica desfavorable a pesar del tratamiento antimicrobiano adecuado, con el fin de facilitar la penetración del mismo hacia los tejidos. Es importante recalcar que solo en casos muy específicos se requiere un abordaje quirúrgico extenso transnasal u otológico, como cuando no se han obtenido muestras suficientes para cultivo, persiste la duda de si se trata de una neoplasia, o cuando se trata de una infección fúngica,¹¹ y casi nunca está indicado un tratamiento quirúrgico agresivo o radical por las secuelas que se pueden generar.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1

Paciente masculino de 67 años de edad que inició con otorrea crónica derecha, en enero de 2020 con otalgia ipsilateral, recibió tratamiento de un ciclo de ciprofloxacino de 1 g durante 10

días, al mes inició con parálisis facial derecha H-B VI, sin alivio con un ciclo de esteroides orales de 15 días, acompañado de complejo B, sin ninguna modificación de la movilidad posterior a tratamiento, en junio se agregó disfonía y leve disfagia, en la nasofibrolaringoscopia se encontró parálisis cordal izquierda completa, en este periodo la disfagia progresó a severa, se inició protocolo de estudios de imagen, realizando una tomografía computada contrastada, una resonancia magnética (**Figuras 1 a 3**) y se hizo una biopsia del tejido de la nasofaringe y adyacente a la base del cráneo mediante endoscopia nasal, que reportó inflamación crónica y abundantes macrófagos, posterior a esto se realizó un gammagrama con Tc 99 en donde se visualizaron cambios de captación y se determinó el diagnóstico de osteomielitis de la base del cráneo central. Se inició tratamiento. **Figura 4**

Caso 2

Paciente femenina de 78 años, con antecedente de diabetes mellitus e hipertensión arterial desde hacía 20 años. Tuvo otorrea y otalgia izquierdas,

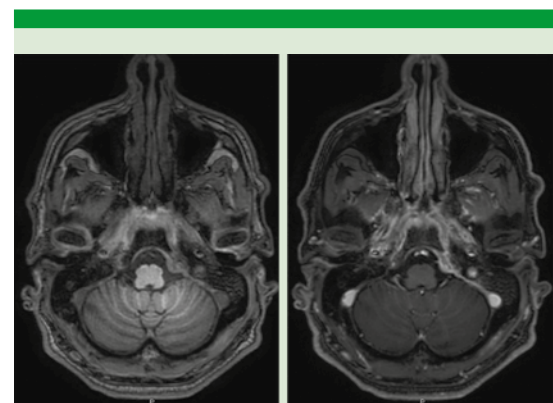


Figura 1. Resonancia magnética en cortes axiales, ponderadas en secuencias de T1 y T1 +C, se observa realce del clivus tras la administración de material de contraste y leptomeníngeo en la fosa posterior.

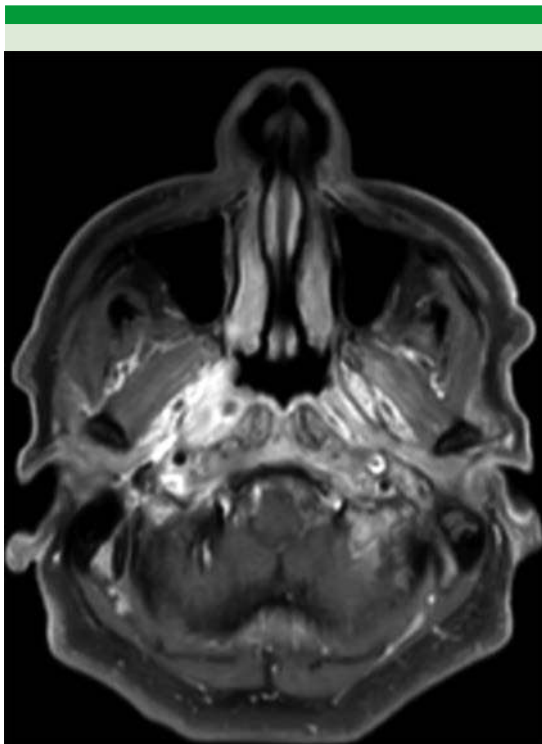


Figura 2. Resonancia magnética en corte axial, en secuencia T1 Dixon +C, se identifica una lesión de los tejidos blandos a nivel de la fosa de Rosenmüller, dependiente del espacio mucoso faríngeo y parafaríngeo, que se extiende hacia la región contralateral.

cefalea diaria holocraneana, cervicalgia y mareo desde 5 meses previos a su valoración. Recibió tratamientos previos con antibióticos orales sin mejoría. A la otoscopia izquierda se observó abundante otorrea y tejido de granulación que no permitía visualizar la membrana timpánica, la endoscopia nasal mostró aumento de volumen retrofaríngeo en la fosa de Rosenmüller izquierda, sin ulceraciones de la mucosa. La TC contrastada y la resonancia magnética con gadolinio mostraron erosión del ápex petroso izquierdo y clivus y celulitis de la región retro y parafaríngea del lado izquierdo. **Figuras 5 a 7**

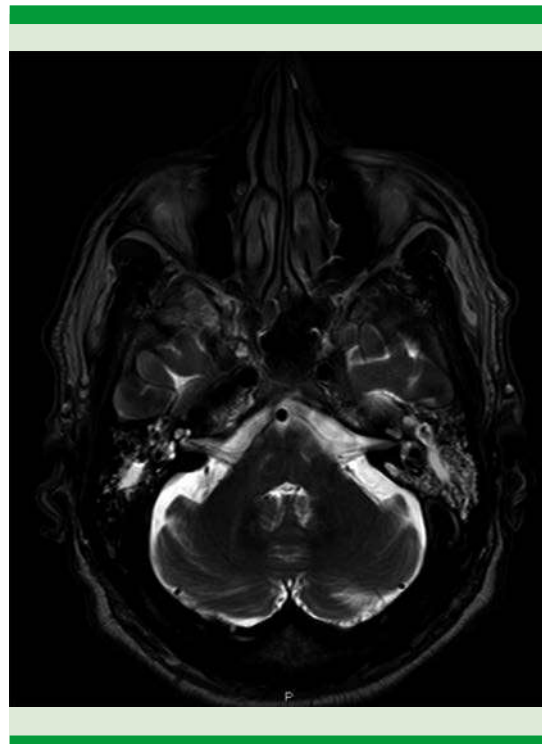


Figura 3. Resonancia magnética en corte axial, en secuencia T2, que muestra ocupación bilateral de las celdillas mastoideas con predominio izquierdo, en relación con otomastoiditis.

Se tomó biopsia de la nasofaringe que mostró tejido normal y de oído que mostró inflamación aguda y crónica intensa con infiltrado de células plasmáticas y leucocitos, el cultivo fue positivo para *Pseudomonas aeruginosa*. La gammagrafía con Tc99 mostró actividad en la región del ápex petroso izquierdo. Se inició tratamiento con ciprofloxacino IV, luego se continuó por vía oral al tercer día. Se observó alivio sustancial de los síntomas a las dos semanas de tratamiento.

Caso 3

Paciente masculino de 58 años con antecedente de diabetes mellitus desde hacía 28 años, hipertensión arterial hacía 18 años y posoperado de timpanoplastia izquierda en mayo de 2017. En

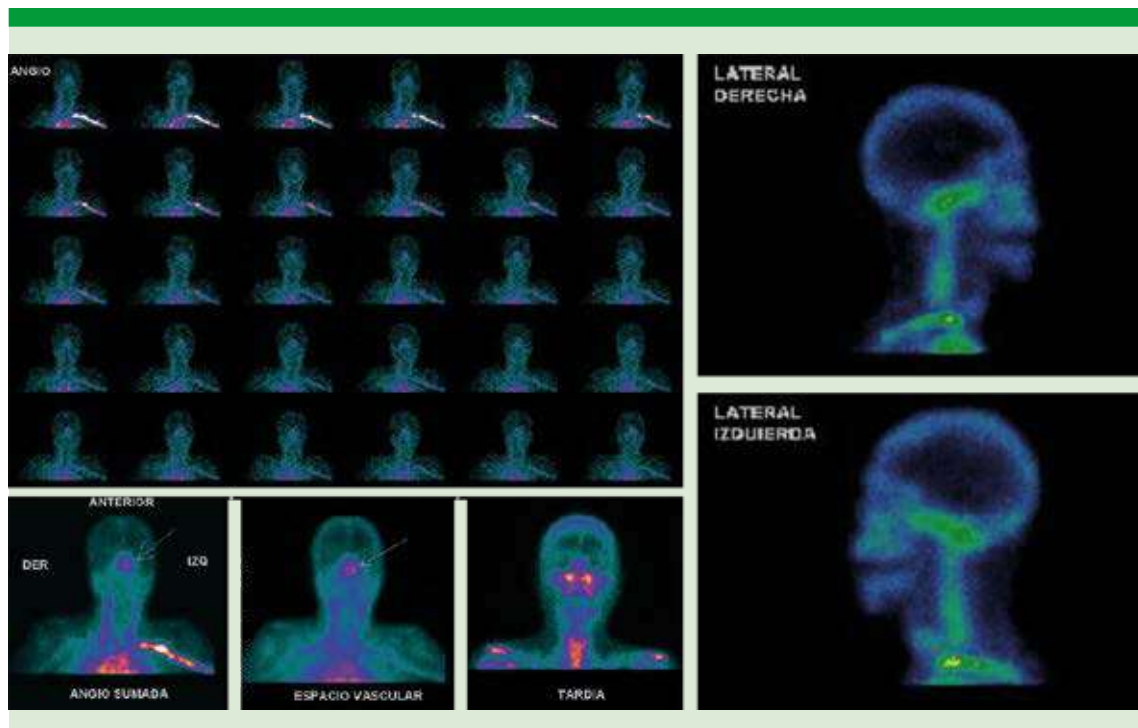


Figura 4. Centellografía ósea de 3 fases con ^{99m}Tc -MDP. Zona de mayor captación en la base del cráneo en relación con incremento en la perfusión, permeabilidad vascular y osteogénesis asociada con proceso infeccioso.

agosto de 2017 inició con otorrea y parálisis facial izquierda de curso lentamente progresivo sin alivio con el tratamiento con esteroides orales; 3 meses más tarde, en noviembre de 2017, se agregó cefalea holocraneana, fiebre de 38.5°C , disfagia, desorientación y descontrol metabólico, por lo que requirió manejo en terapia intensiva durante 45 días, al tercer día de hospitalización tuvo deterioro de la función respiratoria con necesidad de intubación, se realizó traqueostomía al día 23. La TC contrastada, la resonancia magnética con gadolinio y el gammagrama con $\text{Tc}99$ -ubiquidina (**Figuras 8 a 10**) reportaron erosión de las estructuras de la base del cráneo del lado izquierdo e incremento de la concentración del radiofármaco en la base del cráneo y el oído medio izquierdo. La biopsia y el cultivo del oído medio reportaron inflama-

ción crónica con infiltrado polimorfonuclear y linfoplasmocitario difuso con crecimiento de *Pseudomonas aeruginosa*. Se inició tratamiento con levofloxacino y meropenem IV durante la hospitalización, se continuó con levofloxacino 750 mg cada 24 horas vía oral hasta completar 6 meses. Después de un seguimiento a tres años el paciente continúa con parálisis facial House Brackman III, completó rehabilitación foniatría sin secuelas de disfagia.

DISCUSIÓN

La osteomielitis de la base del cráneo central es una enfermedad rara que se manifiesta con síntomas inespecíficos en su inicio; las manifestaciones que se han descrito pueden ser cefalea severa en el 64 al 87% de los pacientes,^{7,12} fiebre



Figura 5. Tomografía axial computada simple con erosión del ápex petroso y clivus del lado izquierdo.

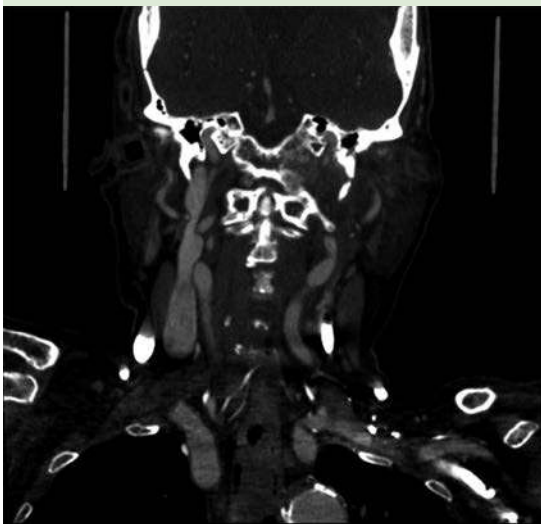


Figura 6. Tomografía computada coronal con contraste endovenoso y ventana para hueso, con erosión del ápex petroso izquierdo y clivus, así como aumento de la densidad y volumen de los tejidos blandos adyacentes.

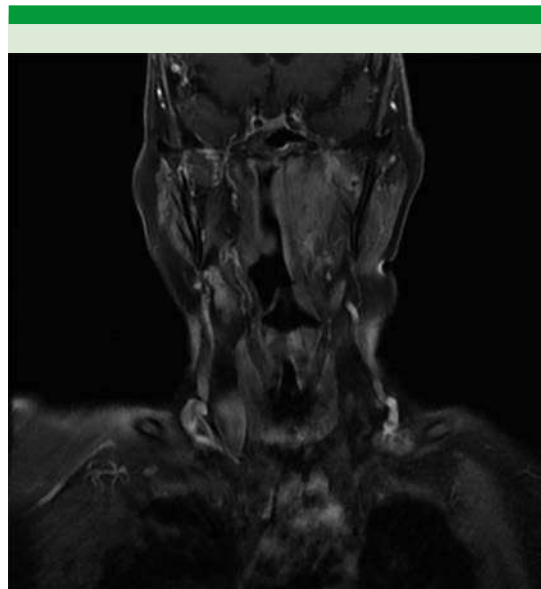


Figura 7. Resonancia magnética en T1 con contraste endovenoso, en corte coronal muestra el realce de los tejidos blandos en el espacio parafaríngeo izquierdo.

en el 28 al 50%, otalgia en el 80%, otorrea en el 30%,¹³ otitis media con derrame, crisis convulsivas, alteración del estado neurológico,¹⁴ infartos cerebrales múltiples¹⁵ o afectación del nervio facial, los pares craneales bajos o ambos (70%).¹⁶

La vía de diseminación más común es la otógena; sin embargo, también está descrita la esfenoidal y menos comúnmente la hematógena,¹⁷ aunque en ocasiones no es posible identificar un foco infeccioso específico.¹⁸

El diagnóstico diferencial deberá hacerse con carcinoma nasofaríngeo, leucemia, linfoma, melanoma, tumores neuroendocrinos, pseudotumor inflamatorio y enfermedades inflamatorias, como granulomatosis con poliangeítis, tuberculosis, sarcoidosis, displasia fibrosa y enfermedad de Paget,¹⁹ de ahí la importancia de contar con un alto índice de sospecha, conocer las caracte-



Figura 8. Tomografía computada con contraste en corte axial con erosión del clivus y la región petrosa izquierda, los tejidos blandos del espacio faríngeo mucoso y retrofaríngeo izquierdo muestran realce difuso.

rísticas clínicas y radiológicas y apoyarse de la biopsia en caso necesario.

Los exámenes de laboratorio pueden ser una herramienta útil en el diagnóstico y el diagnóstico diferencial, aunque generalmente no ocurre elevación de las cifras de leucocitos, casi en todos los casos está elevada la velocidad de sedimentación globular, lo que no ocurre en el caso de una neoplasia nasofaríngea, éste puede ser también un marcador que guíe el seguimiento.^{19,20}

Las características radiológicas publicadas en la bibliografía se mencionan a continuación.

En caso de que el origen sea otitis externa necrotizante, en la tomografía computada podemos apreciar inicialmente engrosamiento de los tejidos blandos del oído externo. Puede observarse

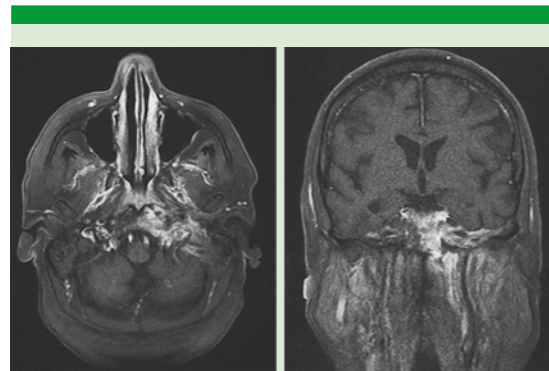


Figura 9. Resonancia magnética en corte axial y coronal, en secuencia de T1 con gadolinio que muestran un realce ávido del material de contraste en el clivus y los tejidos blandos adyacentes con predominio izquierdo.

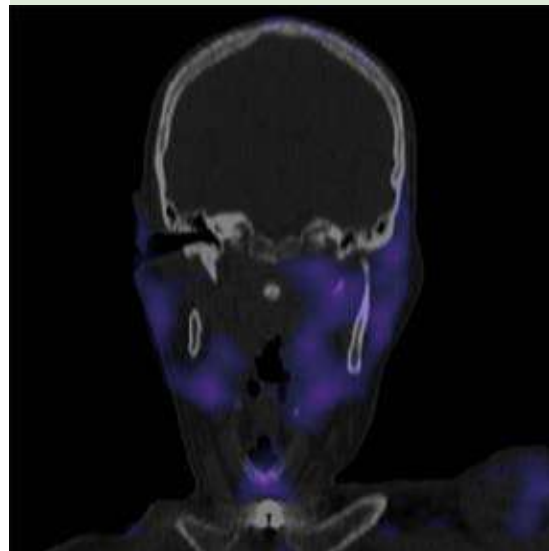


Figura 10. Gammagrafía con Tc99-ubiquidina en corte coronal, con aumento en la captación del radiofármaco en la región petrosa izquierda.

borramiento de los planos grasos en los tejidos blandos circundantes, captación moderada del medio de contraste, ligera erosión de las corti-



cales óseas y ocupación de la caja timpánica y celdillas mastoideas en algunos casos.^{2,3}

La resonancia magnética, útil para evaluar de mejor manera el tejido blando, muestra en T1 engrosamiento de los tejidos del oído externo y reducción de la intensidad de señal en el hueso; en T2 se observa el hueso isointenso y, en caso de edema, podemos observar hiperintensidad, las hipointensidades pueden relacionarse con la existencia de tejido fibroso o necrótico; tras la aplicación de gadolinio podemos observar captación difusa en los tejidos, las lesiones con captación en halo deben hacer sospechar un absceso. Para diferenciar la osteomielitis de la base del cráneo de un proceso neoplásico se describen algunas diferencias, el carcinoma nasofaríngeo causa distorsión de la arquitectura de la zona, mientras que en la mayoría de los casos, la osteomielitis de la base del cráneo preserva intactos los planos faciales, esta diferencia principalmente se nota en T1 y T1 con contraste; la extensión hacia lateral es más común en osteomielitis de la base del cráneo, las neoplasias de nasofaringe permanecen centrales; el daño de los ganglios linfáticos es casi una condición *sine qua non* en las neoplasias nasofaríngeas, mientras que en osteomielitis son hallazgos sumamente raros y, por último, la existencia de abscesos debe orientar a la mayor seguridad de osteomielitis.^{17,21}

Las imágenes de medicina nuclear con tecnecio-99-MDF ayudan a localizar el foco de osteomielitis, ya que son capaces de detectar actividad osteoblástica, con alta sensibilidad, pero poca especificidad, por lo que debe complementarse con otros isótopos que midan la actividad de leucocitos, como galio-67, indio-111 o tecnecio-99-ubiquicidina.^{22,23,24}

CONCLUSIONES

La osteomielitis de la base del cráneo central generalmente afecta a hombres de más de 50

años, su inicio es con cefalea y afección a nervios craneales de predominio bajos (IX, X, XI) y en raras ocasiones el XII, con una manifestación tan inespecífica y con algunos estudios de imagen no concluyentes debe tenerse un gran índice de sospecha para llegar al diagnóstico y tratamiento adecuado. El diagnóstico inicial debe confirmarse con un gammagrama de Tc99 y con estudios de control de tratamiento con galio67/indio-111.

El tratamiento consiste en antimicrobianos intravenosos en un inicio y posteriormente por vía oral, rara vez se da un tratamiento quirúrgico agresivo, solo en el grupo de pacientes en el que se ha visto recurrencia de la enfermedad o existe incertidumbre en el diagnóstico definitivo.

REFERENCIAS

1. Adams A, Offiah C. Central skull base osteomyelitis as a complication of necrotizing otitis externa: Imaging findings, complications, and challenges of diagnosis. *Clin Radiol* 2012; 67: e7-e16.
2. Kornilenko L, Rocka S, Balseris S, Arechvo I. Clinical challenges in the diagnosis of temporal bone osteomyelitis. *Case Reports Otol* 2017; 4097973. <https://doi.org/10.1155/2017/4097973>.
3. Ganhewa AD, Kuthuburen J. A diagnostic dilemma of central skull base osteomyelitis mimicking neoplasia in a diabetic patient. *BMJ Case Reports* 2013. <http://dx.doi.org/10.1136/bcr-2012-007183>.
4. Subbaram N, Chaurasia K. Skull base osteomyelitis interpreted as malignancy. *J Laryn Otol* 1999; 113: 775-78. doi: 10.1017/s0022215100145189.
5. El-Maghraby TA, Moustafa HM, Pauwels EK. Nuclear medicine methods for evaluation of skeletal infection among other diagnostic modalities. *Q J Nucl Med Mol Imaging* 2006; 50 (3): 167-92.
6. Ozgen B, Oguz KK, Cila A. Diffusion MR imaging features of skull base osteomyelitis compared with skull base malignancy. *Am J Neuroradiol* 2011; 32: 179-84. DOI: <https://doi.org/10.3174/ajnr.A2237>.
7. Das S, Iyadurai R, Gunasekaran K, Karuppusamy R, Mathew Z, Rajadurai E, John AO, Mani S, George T. Clinical characteristics and complications of skull base osteomyelitis: A 12-year study in a teaching hospital in South India. *J Family Med Prim Care* 2019; 8 (3): 834-839. doi: 10.4103/jfmpc.jfmpc_62_19.
8. Muranjan S, Khadilkar S, Wagle S, Jaggi S, Central skull base osteomyelitis: Diagnostic dilemmas and management

- issues. *Ind J Otol Head Neck Surg* 2016; 68 (2): 149-156. doi: 10.1007/s12070-015-0919-3.
9. Ducic Y. Skull base osteomyelitis. *South Med J* 2006; 99 (10): 1051.
 10. Khan, et al. Skull-base osteomyelitis. *Asian J Neurosurg* 2018; 13 (4): 959-970.
 11. Thomas R. Targeted skull base biopsies in the management of central skull base osteomyelitis. *Clinical Otolaryngol* 2020; 00: 1-3. doi: 10.1111/coa.13627.
 12. Pahn K, Choi, Ji Y Chung, Hyun G Kang. Central skull base osteomyelitis presenting only with a severe headache. *Headache* 2018; 58 (8): 1236-1237. doi: 10.1111/head.13403.
 13. Ridder G, Breunig C, Kaminsky J, Pfeiffer J. Central skull base osteomyelitis: new insights and implications for diagnosis and treatment. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2014; 272 (5): 1269-76. DOI: 10.1007/s00405-014-3390-y.
 14. Chawdhary G, Hussain S, Corbridge R. Delayed diagnosis of central skull-base osteomyelitis with abscess: case report and learning points. *Ann R Coll Surg Engl* 2017; 99 (1): e24-e27. doi: 10.1308/rcsann.2016.0283.
 15. Haruka Miyabe, Atsuhiko Uno, Takahiro Nakajima, Natsue Morizane, Keisuke Enomoto, Masayuki Hirose, Toshinori Hazama, Yukinori Takenaka. A case of skull base osteomyelitis with multiple cerebral infarction. *Case Reports Otolaryngol* 2016; 2016: 9252361. <https://doi.org/10.1155/2016/9252361>.
 16. Suma Radhakrishnana, Hiba Mujeeba, Chandni Radhakrishnanb. Central skull base osteomyelitis secondary to invasive aspergillus sphenoid sinusitis presenting with isolated 12th nerve palsy. *IDCases* 2020; 22: e00930. doi: 10.1016/j.idcr.2020.e00930.
 17. Goh JPN, Karandikar A, Loke SC, Tan TY. Skull base osteomyelitis secondary to malignant otitis externa mimicking advanced nasopharyngeal cancer: MR imaging features at initial presentation. *Am J Otolaryngol* 2017; 38 (4): 466-471. doi: 10.1016/j.amjoto.2017.04.007.
 18. Ganhewa AD, Kuthubutheen J. A diagnostic dilemma of central skull base osteomyelitis mimicking neoplasia in a diabetic patient. *BMJ Case Reports* 2013. doi:10.1136/bcr-2012-007183.
 19. Johnson AK, Batra PS. Central skull base osteomyelitis. *Laryngoscope* 2014; 124: 1084-1088. <https://doi.org/10.1002/lary.24440>.
 20. Clark PA, Pretorius PM, Byren I, Milford CA. Central or atypical skull base osteomyelitis: Diagnosis and treatment. *Skull Base* 2009; 19: 247-254. doi: 10.1055/s-0028-1115325.
 21. Lesser D, Derbyshire S G, Lewis-Johnes H. Differentiating central skull base osteomyelitis from malignancy. *J Laryngol Otol* 2015; 129: 852-859.
 22. Parisier S, Lucente FE, Som PM, Hirschman SZ, et al. Nuclear scanning in necrotizing progressive "malignant" external otitis. *Laryngoscope* 1982;92:1016e9.
 23. Ostfeld E, Aharon A, Pelet D. Malignant external otitis: the diagnostic value of bone scintigraphy. *Laryngoscope* 1981; 91: 960e4.
 24. Ayati N, Norouzi M, Sadeghi R, Erfani M, Gharedaghi M, Aryana K. Diagnostic value of 99mTc-ubiquicidin scintigraphy in differentiation between osteomyelitis and bone tumors. *Nucl Med Commun* 2017; 38 (11): 885-890. doi: 10.1097/MNM.0000000000000744.