

Laporan Kasus: Otitis Media Supuratif Kronik Tipe Kolesteatoma dengan Fistel Kutaneus Multipel dan Kelainan Kongenital Telinga Luar Unilateral

Fransiskus Poluan,*Arif Dermawan, Lina Lasminingrum, Bogi Soeseno

Departemen Ilmu Kesehatan Telinga Hidung Tenggorok Bedah Kepala Leher
Fakultas Kedokteran Universitas Padjadjaran/ Rumah Sakit Dr. Hasan Sadikin Bandung 2016

Abstrak

Otitis media supuratif kronik (OMSK) tipe kolesteatoma sering dijumpai dan dapat menimbulkan komplikasi seperti fistel kutaneus. Kelainan kongenital telinga luar berupa mikrotia dan atresia liang telinga merupakan faktor predisposisi terbentuknya OMSK tipe tersebut. Pada tulisan ini dilaporkan kasus OMSK tipe kolesteatoma yang disertai fistel kutaneus multipel dan kelainan kongenital telinga luar. Seorang perempuan berusia 21 tahun memiliki riwayat nyeri telinga disertai otorea berulang pada telinga kanan sejak tiga tahun yang lalu. Kelainan tersebut disertai keluarnya cairan dari fistel kutaneus pada daerah preaurikular dan retroaurikular. Selain itu, pasien juga menderita kelainan kongenital telinga luar yaitu mikrotia dan atresia kanalis akustikus eksternus. Untuk tata laksana dilakukan mastoidektomi dinding runtuh dan penutupan primer fistel dan kanaloplasti. Kasus ini, OMSK tipe kolesteatoma dengan fistel kutaneus multipel disertai kelainan telinga luar, merupakan kasus yang jarang ditemukan.

Kata kunci: kolesteatoma, mikrotia, mastoidektomi dinding runtuh

Case Report: Chronic Suppurative Otitis Media with Cholesteatoma Accompanied by Unilateral Congenital Anomaly of the External Auricle

Abstract

Chronic suppurative otitis media (CSOM) with cholesteatoma often leads to complications such as cutaneous fistula. Congenital outer ear abnormality such as microtia and aural atresia is a predisposing factor of cholesteatoma formation and middle ear infection. We present a case of 21-year old woman who came with history of pain in her right ear with recurrent otorrhea since 3 years ago and discharge from preauricular and retroauricular fistulae, with microtia and aural atresia. Canal wall down mastoidectomy, primary closing of fistula and canaloplasty were successfully done. Currently, the general condition of the patient is fine. CSOM with cholesteatoma and multiple cutaneous fistula with congenital outer ear abnormality is a rare case, which can be treated with canal wall down mastoidectomy primary closing of cutaneous fistula with edge excision and canaloplasty.

Keywords: cholesteatom, microtia, canal wall down mastoidectomy.

*FP: Penulis Koresponden; E-mail: fransiskuspoluan@gmail.com

Pendahuluan

Otitis media supuratif kronik (OMSK) dibagi atas dua tipe, yaitu tipe dengan dan tanpa kolesteatoma. Otitis media supuratif kronik dengan kolesteatoma sering menimbulkan komplikasi berbahaya, sehingga membutuhkan terapi pembedahan.^{1,2}

Belum pernah dilaporkan kejadian OMSK tipe kolesteatoma dengan multipel fistel kutaneus di Poli THT-KL Rumah Sakit Dr. Hasan Sadikin (RSHS) ataupun dari literatur dalam sepuluh tahun terakhir. Kelainan kongenital telinga luar berupa mikrotia dan atresia liang telinga merupakan kelainan yang jarang terjadi.^{3,4}

Mikrotia dan atresia liang telinga terjadi akibat kegagalan pada perkembangan aurikula dan proses kanalisasi pada minggu ke-4 hingga minggu ke-28. Pada atresia liang telinga, sel epitel mudah terperangkap sehingga berisiko tinggi untuk terbentuknya kolesteatoma dan infeksi telinga tengah.³⁻⁶

Salah satu komplikasi OMSK adalah terjadinya abses retroaurikuler yang bila tidak ditangani akan mengakibatkan terjadinya fistel kutaneus. Fistel di sekitar telinga dapat terjadi kongenital dan didapat. Kelainan kongenital biasanya terjadi di daerah pre aurikuler yang disebabkan kegagalan perkembangan embriologi daun telinga. Fistel yang didapat terjadi akibat tumor atau infeksi seperti mastoiditis. Angka kejadian fistel retroaurikular pada kolesteatoma jarang terjadi: hanya enam kasus yang dilaporkan dalam literatur sedangkan di bagian THT-KL RSHS tahun 2013-2014 terdapat tiga kasus fistel retroaurikular dengan kolesteatom. Multipel fistel yang disebabkan oleh OMSK tipe maligna jarang dilaporkan.⁷⁻⁹

Pseudomonas aeruginosa merupakan bakteri yang paling banyak ditemukan pada kolesteatoma, diikuti oleh *Staphylococcus aureus* dan *Proteus mirabilis*.¹⁰

Kolesteatoma yang luas atau yang mengalami komplikasi memerlukan terapi pembedahan. Prosedur bedah mastoidektomi dinding runtuh merupakan metode yang mempunyai kemampuan tinggi dalam membersihkan kolesteatoma dibandingkan prosedur pembedahan yang lain.^{2,8}

Penutupan fistel dapat dilakukan antara lain dengan penutupan primer tepi fistel yang telah dieksisi, *graft* tulang atau kartilago, penutupan dengan menggunakan epitel mastoid, flap periosteal, *graft fat-free* abdomen, flap kulit rotasional, flap transposisi fascia temporalis superfisial dan flap rotasional otot temporalis.¹⁰⁻¹²

Laporan Kasus

Seorang perempuan berusia 21 tahun datang dengan keluhan nyeri pada telinga kanan disertai otorea berulang sejak tiga tahun terakhir disertai keluar cairan dari fistel kutaneus pada daerah preaurikular dan retroaurikular. Keluhan tersebut tidak disertai wajah mencong, demam, atau pusing berputar dan tidak terdapat riwayat trauma dan riwayat operasi telinga sebelumnya. Terdapat riwayat nyeri pada daerah belakang telinga dan demam yang hilang timbul. Pasien mempunyai kelainan bawaan berupa daun telinga kanan berukuran lebih kecil dibandingkan kiri yang disertai liang telinga kanan yang sempit.

Pada pemeriksaan fisik THT-KL tidak ditemukan adanya gangguan pada daerah kavum nasi, orofaring, maksilofasial dan daerah leher. Pemeriksaan fisik memperlihatkan mikrotia telinga kanan dengan struktur pinna yang masih lengkap, kanalis akustikus eksterna yang sempit dan membran timpani sulit dinilai. Audiometri menunjukkan gangguan dengar campuran derajat berat (nada murni rata-rata di 4 frekuensi adalah 70 dB).

CT-scan temporal menunjukkan kerusakan dinding posterior oleh lesi di

rongga mastoid yang juga menghancurkan tulang-tulang pendengaran dan tegmen timpani. Temuan intra-operatif terdapat lesi berupa fistel pada daerah retroaurikular, supra aurikular dan preaurikula. Selain itu, ditemukan destruksi ekstensif pada berbagai tempat yang disebabkan oleh kolesteatoma yang luas. Pada pasien dilakukan tindakan operasi mastoidektomi dinding runtuh dan penjahitan secara primer dengan eksisi tepi luka fistula yang nekrotik serta dilakukan tindakan kanaloplasti.

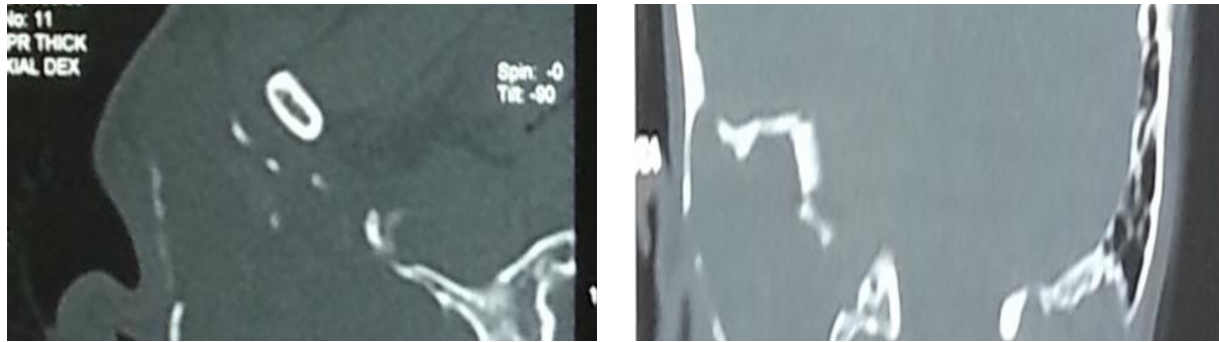
Kultur kuman yang dilakukan pada kolesteatoma ditemukan bakteri *Citrobacter amalonaticus*. Pada pemeriksaan histopatologi ditemukan materi dengan lembaran konsentris yang berasal dari selubung epitel skuamosa. Tindak lanjut pemeriksaan tujuh hari setelah operasi, terdapat otore, tidak terdapat demam dan paralisis saraf fasialis perifer serta fistel menutup dengan baik. Pada pemeriksaan satu bulan kemudian pasien tidak mengalami demam, otorea, nyeri retroaurikular dan fistel mengalami penutupan luka dengan baik tanpa terjadi rekurensi.



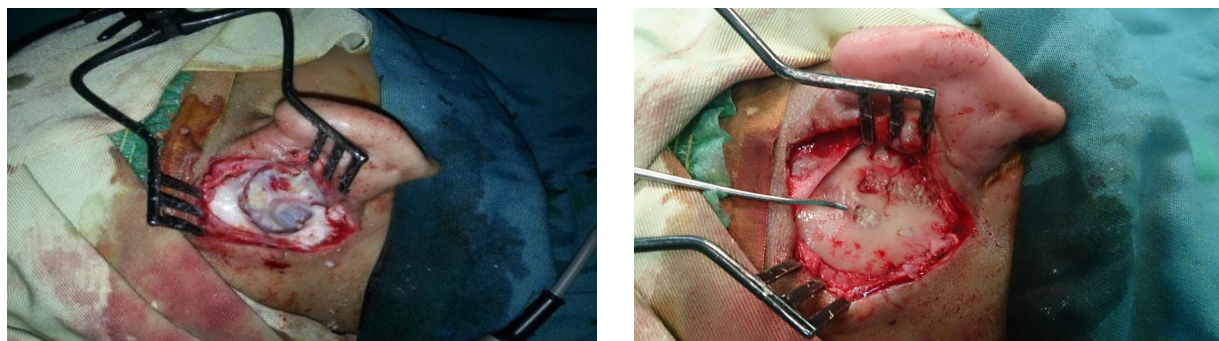
Gambar 1. Kondisi klinis pasien sebelum menjalani operasi. Tampak lesi berupa fistel di daerah pre dan post-aurikuler kanan, serta mikrotia *grade I* dan atresia liang telinga



Gambar 2. Foto schuller mastoid ditemukan mastoiditis dengan kolesteatoma



Gambar 3. Ct scan Mastoid potongan axial dan koronal ditemukan kolesteatom yang luas mendestruksi jaringan sekitarnya



Gambar 4. Foto intra operasi ditemukan kolesteatom yang mendestruksi korteks mastoid dan memenuhi antrum mastoid



Gambar 5. Pasca operasi ditemukan perbaikan pada fistel yang telah dikoreksi dan telah dilakukan kanaloplasti

Diskusi

Dilaporkan OMSK pada pasien perempuan usia 21 tahun. Ditemukan keluar cairan dari telinga sejak tiga tahun lalu yang disertai dengan fistel multipel pada daerah preaurikular dan retroaurikular disertai mikrotia dan atresia liang telinga. Kejadian multipel fistel pada OMSK tipe kolesteatoma

ini yang disertai kelainan kongenital telinga luar jarang dilaporkan

Insidens mikrotia dengan atresia liang telinga adalah 1:10 000 - 20 000 kelahiran dan bersifat unilateral (70%) dan lebih sering terjadi pada laki-laki dibandingkan wanita dengan rasio 2,5:1. Pada kasus ini, ditemukan mikrotia unilateral dengan atresia liang telinga pada sisi kanan. Berdasarkan

klasifikasi mikrotia menurut Weerda yang membagi mikrotia ke dalam tiga derajat, mikrotia pada pasien ini termasuk ke dalam derajat 1 pada telinga kanan.^{3,4}

Mikrotia terjadi karena kegagalan pembentukan aurikula pada minggu ke-4 sampai ke-12 kehamilan. Secara embriologis, aurikula berasal dari 6 hillock pada arkus brankial pertama dan kedua. Kanalis akustikus eksternus berasal dari arkus brankial pertama dan kantong faringeal pertama yang terjadi pada minggu ke-6 hingga ke-8 kehamilan. Atresia atau stenosis terjadi bila proses kanalisasi berhenti secara prematur.³⁻⁵

Telah diketahui bahwa sebagian besar kolesteatoma adalah didapat. Hal itu sesuai dengan kasus ini, karena adanya riwayat otitis media kronis dengan otorea sekitar tiga tahun yang terjadi terus-menerus.^{1,2}

Pada temuan intra-operatif terdapat bukti adanya fistel kutaneus yang berada pada daerah preaurikular dan retroaurikular. Fistel yang terjadi di kedua tempat tersebut diawali pada daerah retroaurikular yang diakibatkan destruksi korteks mastoid oleh kolesteatoma yang secara bertahap mencapai jaringan lunak sehingga terjadi infeksi yang mengakibatkan nekrosis jaringan lunak dan terbentuknya abses pada subperiosteal. Abses tersebut mencari jalan ke anterior, yaitu daerah preaurikular melalui daerah zigoma/supraaurikular. Destruksi pada daerah intratemporal disebabkan oleh kolesteatoma tersebut. Penemuan intra-operatif mendukung ciri kolesteatoma yang erosif dan destruktif.⁷⁻⁹

Berdasarkan kultur kuman ditemukan *C. amalonaticus* yang selama ini belum pernah dilaporkan. Kuman yang paling banyak ditemukan pada kolesteatoma adalah *P. aeruginosa* diikuti oleh *S. aureus* dan *P. mirabilis*. Absorpsi tulang pada otitis media kronis dengan kolesteatoma dicetuskan oleh beberapa faktor, di antaranya inflamasi, tekanan lokal, sitokeratin dan keratin

spesifik, yang juga ditemukan pada pasien ini yang mengalami destruksi pada mastoid.⁹

Tatalaksana otitis media kronis adalah tindakan operasi, seperti yang dilakukan pada pasien ini. Tujuannya adalah untuk menyembuhkan penyakit, membuat telinga pasien kering dan mencegah komplikasi. Tujuan lainnya adalah untuk menjaga fungsi pendengaran yang sayangnya tidak dapat dicapai pada pasien ini karena adanya komplikasi patologis yang dimiliki pasien ini.⁸

Telah diketahui bahwa penatalaksanaan kolesteatoma adalah dengan pengangkatan seluruh kolesteatoma beserta jaringan yang rusak, yang juga dilakukan pada pasien ini. Untuk mencapai tujuan ini, tindakan terbaik adalah mastoidektomi dinding runtuh. Teknik operasi mastoidektomi dinding runtuh dilakukan untuk eradikasi dan pencegahan rekurensi, namun tidak dapat mempertahankan anatomi. Sebaiknya tidak dilupakan bahwa operasi dengan teknik ini membuat rongga yang membutuhkan perawatan yang teliti seumur hidup pasien tersebut. Pasien juga harus membatasi kegiatan olahraga, seperti berenang dan menyelam, karena dinding posterior telah dihancurkan sehingga terdapat hubungan dengan dunia luar sehingga mudah terjadi infeksi.⁸

Selanjutnya dilakukan penutupan secara primer pada fistel kutaneus dengan eksisi pada tepi fistula yang nekrotik. Metode ini dipilih karena jaringan sehat masih dapat dipreservasi, walaupun dilaporkan angka keberhasilannya tidak memuaskan.¹⁰

Pada pasien ini juga dilakukan tindakan kanaloplasti untuk membuat liang telinga menjadi lebih lebar sehingga mempermudah pembersihan kavitas operasi. Rekonstruksi daun telinga tidak dilakukan karena masih ditemukan bagian daun telinga yang lengkap.

Secara alami, kesembuhan total membutuhkan jangka waktu pascaoperasi

yang lebih panjang. Pada pasien ini dalam jangka waktu lebih dari 1 bulan pasien tidak mengalami demam, otorea, nyeri retroaurikular dan fistel mengalami penutupan luka dengan baik tanpa terjadi rekurensi.

Kesimpulan

Otitis media supuratif kronik kolesteatoma dengan fistel kutaneus multipel dan kelainan kongenital yang meliputi mikrotia dan atresia kanalis akustikus eksterna merupakan suatu keadaan yang jarang ditemukan. Otitis media supuratif kronik tipe kolesteatoma merupakan penyakit yang menimbulkan komplikasi yang berbahaya, sehingga dibutuhkan penanganan yang tepat yaitu operasi mastoidektomi dinding runtuh untuk dapat mengatasi atau mencegah komplikasi yang lebih berat.

Daftar Pustaka

1. Paparella MM, Adams GL, Levine SC. Disease of the middle ear and mastoid. Dalam: Boeis fundamental of otolaryngology 6th edition. Philadelphia:WB Saunders Company. 1989. pp 88-118.
2. Chole RA, Nason R. Chronic otitis media and cholesteatoma. In: Ballenger's manual of otorhinology head and neck surgery. Connecticut: BC Decker 2009;17. pp 217-27
3. Kelley PE, Scholes MA. Microtia and congenital aural atresia. *Otolaryngol Clin N Am.* 2007; 40: 61-80.
4. Edward Y, Rosalinda R. OMSK tipe Bahaya pada pasien dengan kelainan telinga kongenital. Bagian Telinga Hidung Tenggorok Bedah Kepala Leher Fakultas Kedokteran Universitas Andalas/RSUP Dr. M. Djamil Padang. 2011. Pp.171-8
5. Crabtress JA, Harker LA. Developmental Abnormalities of the Ear. [Updated 2001; <http://www.famona.tripod.com/ent/cummings/cumm151.pdf>. 20 Desember 2010
6. Yamane H, Takayama M, Sunami K, Tochino R, Morinaka M. Disregard of cholesteatoma in congenital aural stenosis. *Acta Otolaryngol.* 2007;127(2):221-4
7. Data morbiditas penderita rawat jalan periode Januari 2012 – Desember 2014. Bagian Ilmu Kesehatan THT-KL. Universitas Padjajaran, RS Hasan Sadikin Bandung.
8. Meyer TA, Strunk Jr C, Lambert PR. Cholesteatoma, head & neck surgery – otolaryngology. 5th edition. Johnson JT and Rosen CA, eds. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins. 2014; pp 2433-45.
9. Frickmann H, Zautner AE. Cholesteatoma – a potential consequence of chronic middle ear inflammation. *Otolaryngology.* 2012; S5:1-8.
10. Dhaliwal J, Daniel M, Shah J, O'Donoghue G, Warner G. Supra-auricular cutaneo-cutaneous fistula. *Grand Round.* 2009; 9: 54-7
11. Choo JC, Shaw CL, Chong YC. Postauricular cutaneous mastoid fistula. *J Laryngol Otol* 2004;118(11): 893-4.
12. Wadhera R, Gulati S, Kalra V, Ghai A, Garg A. A large post-auricular cutaneous mastoid fistula caused by a cholesteatoma. *ENT-Ear, Nose Throat J.* 2010; 80(4): 33-4