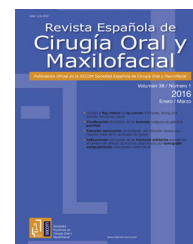




Revista Española de
Cirugía Oral y
Maxilofacial

www.elsevier.es/recom



Caso clínico

Rinosinusitis fúngica no invasiva producida por micetomas. Presentación de 2 casos y revisión de la literatura

Guillermo García-Serrano*, Francisco Pérez-Flecha, Kora Sagüillo, Fernando Almeida, Joaquín González y Julio Acero

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Universitario Ramón y Cajal, Madrid, España

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 26 de marzo de 2014

Aceptado el 13 de octubre de 2014

On-line el 9 de enero de 2015

Palabras clave:

Rinosinusitis fúngica

Micetomas

Bolas fúngicas sinusales

Keywords:

Fungal rhinosinusitis

Mycetomas

Sinus fungal balls

R E S U M E N

La invasión de los senos paranasales por hongos o rinosinusitis fúngica es una enfermedad relativamente infrecuente que puede manifestarse como distintos cuadros clínicos, en función de la agresividad del microorganismo causante, la edad y las enfermedades asociadas del paciente.

Presentamos 2 casos de rinosinusitis fúngica no invasiva en pacientes inmunocompetentes, donde se observan imágenes radiológicas de bolas fúngicas intrasinusales de una inusual radioopacidad metálica.

Realizamos una revisión de la literatura de las rinosinusitis fúngicas, con el objetivo de actualizar la terminología y clasificación de estos cuadros y revisamos la descripción de las bolas fúngicas intrasinusales.

© 2014 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Non-invasive fungal rhinosinusitis produced by mycetomas. Presentation of 2 cases and a review of the literature

A B S T R A C T

The invasion of the paranasal sinuses by fungi, or fungal rhinosinusitis, is a relatively uncommon disorder that may present as different clinical pictures depending on the aggressiveness of the microorganism responsible, age and other illnesses associated with the patient.

Two cases are presented on two immunocompetent patients with non-invasive fungal rhinosinusitis, in whom sinus fungal balls of unusual metallic radio-opacity were observed in the X-ray images.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: maxiloramonycajal5b@gmail.com (G. García-Serrano).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2014.10.001>

1130-0558/© 2014 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

A literature review was performed on fungal rhinosinusitis, with the aim of updating the terminology and classification of these clinical pictures, as well as a review on the description of sinus fungal balls.

© 2014 SECOM. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La rinosinusitis es una enfermedad muy común que afecta hasta al 20% de la población en algún momento de su vida. En su gran mayoría son consecuencia de reacciones alérgicas de la mucosa o infecciones virales leves.

La invasión de los senos paranasales por hongos o rinosinusitis fúngica (RSF) es una enfermedad mucho menos frecuente, que puede manifestarse como distintos cuadros clínicos en función de la agresividad del microorganismo causante, la edad y las enfermedades asociadas del paciente. Siempre debemos estar alerta en pacientes diabéticos e inmunocomprometidos, ya que en ellos son más comunes los cuadros invasivos y destructivos que pueden llegar a comprometer la vida del paciente¹.

Sin embargo, las rinosinusitis fúngicas no invasivas aparecen en pacientes inmunocompetentes, como procesos crónicos con clínica larvada y no demasiado sintomática, por lo que muchas veces son infradiagnosticadas e infratratadas, llegando a observarse grandes crecimientos intrasinusales de hongos. Estas grandes colonias fúngicas se han denominado clásicamente como aspergilomas, micetomas, etc. Sin embargo, estos términos pueden ser incorrectos si nos referimos a la ocupación sinusal por hongos en general.

Los micetomas se definen como pseudotumores inflamatorios crónicos que producen deformación y destrucción de los tejidos sobre los que asientan. Estos se caracterizan por su localización en el tejido celular subcutáneo produciendo infecciones crónicas y fistulas por las que van drenando gránulos fúngicos. Aparecen sobre todo en los pies y las piernas de pacientes que caminan sin protección por zonas endémicas.

Por otro lado, el término «aspergiloma» como sinónimo de la ocupación sinusal por hongos también es incorrecto, ya que no siempre las especies de *Aspergillus* son las causantes de los diferentes cuadros de RSF².

La Sociedad Internacional de Micología Humana y Animal llegó a un consenso en 2009 en el que se recomienda la denominación de bolas fúngicas de los senos a estos cuadros incluidos dentro de las rinosinusitis fúngicas no invasivas³.

Presentamos 2 casos de RSF no invasiva del tipo bola fúngica en pacientes inmunocompetentes, donde se observan imágenes radiológicas de conglomerados de hifas intrasinusales de una inusual radioopacidad metálica.

Caso clínico

Caso 1

Paciente de 26 años de origen centroafricano, inmunocompetente, que como único antecedente personal de interés

refiere haber sido intervenida de rinoseptoplastia hace 2 años. Consulta por dolor intermitente larvado a nivel de la región maxilar derecha de meses de evolución y rinorrea purulenta de leve cuantía. En la anamnesis la paciente refiere sensación de ocupación de la fosa nasal derecha y cefaleas de repetición. La exploración física no aportó hallazgos de interés, ya que en el momento de su realización no se apreciaba rinorrea. Asimismo no se palpaba a nivel intraoral ni extraoral ninguna masa ni alteración en la región maxilar. Tampoco se observaron fistulas en ninguna localización.

Tras la anamnesis y la exploración física se solicita ortopantomografía y radiografía en proyección de Waters, en las que se pueden observar varias imágenes radioopacas de densidad metálica a nivel de seno maxilar derecho, acompañadas de inflamación de toda la mucosa sinusal derecha (fig. 1). Ante los hallazgos solicitamos TC facial.

Las imágenes de la TC nos muestran con mayor detalle la presencia de un conglomerado de imágenes radioopacas a nivel del suelo del seno maxilar derecho, asociadas a una reacción inflamatoria crónica de la mucosa circundante (fig. 2).

Ante los hallazgos de las pruebas de imagen sospechamos que pudiera tratarse de un cuerpo extraño alojado a nivel sinusal. Reinterrogamos a la paciente, que niega inhalación de cualquier tipo de sustancias. Con la sospecha diagnóstica de ocupación fúngica sinusal decidimos abordar el seno maxilar derecho a través de un abordaje tipo Cadwell-Luc por vía intraoral. Se drenó el material purulento acumulado y se extirpó la mucosa afecta, en la que se incluyen varias formaciones de consistencia fibroelástica y color anaranjado que en su conjunto miden 3,5 cm en dimensión máxima. Se realizó antrostomía y colocación de drenaje a la fosa nasal derecha.

La paciente presentó un postoperatorio sin complicaciones, siendo dada de alta a las 24 h de la cirugía.



Figura 1 – Imagen de la ortopantomografía del caso 1, en la que se observan imágenes con radioopacidad metálica a nivel de seno maxilar derecho.

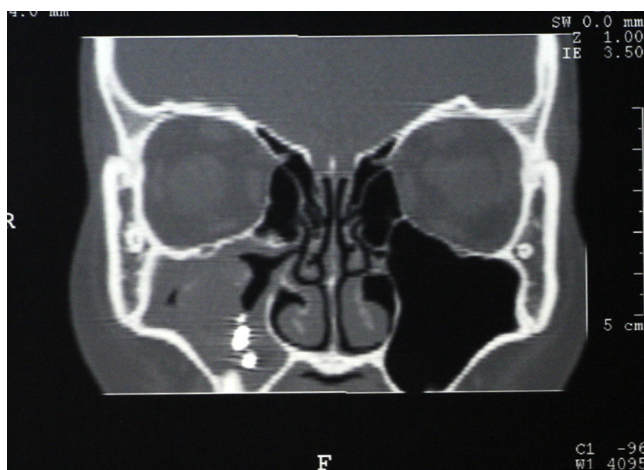


Figura 2 – Imagen de TC coronal sinusal del caso 1, en la que se observan varias imágenes radioopacas de densidad metálica a nivel de seno maxilar derecho, acompañadas de inflamación de toda la mucosa sinusal derecha.

Pese a que los resultados de los estudios microbiológicos resultaron negativos, sin crecimiento de ningún microorganismo en los mismos, el estudio AP reveló la presencia de una mucosa sinusal con signos de inflamación crónica, adyacentes a una gran bola fúngica con hifas de gran tamaño ramificadas, sugestivas de infección por *Aspergillus*, sin poder descartar otros hongos con hifas de gran tamaño como mucor.

Dada la presencia de infiltración de la mucosa sinusal por parte del hongo se decide reingresar a la paciente para tratamiento antibiótico y antifúngico sistémico IV consensuado con el servicio de enfermedades infecciosas (amoxicilina/ácido clavulánico y anfotericina B). La paciente evolucionó de forma favorable, siendo dada de alta tras 5 días de tratamiento IV para continuar con tratamiento oral de forma ambulatoria con voriconazol. No se objetivaron complicaciones, ni recidivas en las revisiones posteriores en un seguimiento de 10 años.

Caso 2

Paciente de 67 años de origen indoeuropeo que consulta remitida por su odontólogo tras el hallazgo incidental, al realizar una ortopantomografía, de imágenes intrasinasales de radiopacidad metálica.

Como antecedentes personales solo destacaba una herida por arma de fuego 12 años antes de la consulta, en la región temporal izquierda. La paciente presentaba clínica de cefalea y sensación de ocupación pansinusal más marcada a nivel del seno maxilar izquierdo, acompañada de rinorrea ocasional por la fosa nasal izquierda.

La exploración física volvió a resultar anodina, sin abombamiento a nivel vestibular en el segundo cuadrante, ni hallazgo de fístulas orosinusales visibles.

Las pruebas de imagen realizadas (ortopantomografía, DentaScan y TC facial) mostraron la presencia de material a nivel intrasinusal de radiopacidad metálica en forma de un único nódulo de forma circular en la región superolateral del seno maxilar izquierdo, asociado a reacción inflamatoria de la mucosa sinusal (fig. 3).

Dados los antecedentes de herida por arma de fuego de la paciente se pensó que pudiera tratarse de cuerpos extraños intrasinusales derivados del mismo, así que se realizó un Cadwell-Luc y antrostomía por vía intraoral para la extirpación del cuerpo extraño y de la mucosa sinusal afecta, sin identificarse fragmentos metálicos o restos óseos. Se obtuvo un material blanquecino de consistencia fibroelástica similar al obtenido en el caso presentado anterior.

El estudio anatomopatológico se informó como mucosa sinusal con signos de inflamación crónica, asociada a material blanquecino formado por hifas ramificadas compatibles con bola fúngica intrasinusal causada por *Aspergillus*. Los estudios microbiológicos volvieron a resultar negativos.

En este caso la mucosa no se hallaba infiltrada a ningún nivel, por lo que la paciente fue dada de alta a las 48 h de la cirugía sin complicaciones ni necesidad de tratamiento antifúngico intravenoso.

En las revisiones posteriores la paciente refiere desaparición de la clínica y ausencia de complicaciones en un periodo de seguimiento de 8 años.

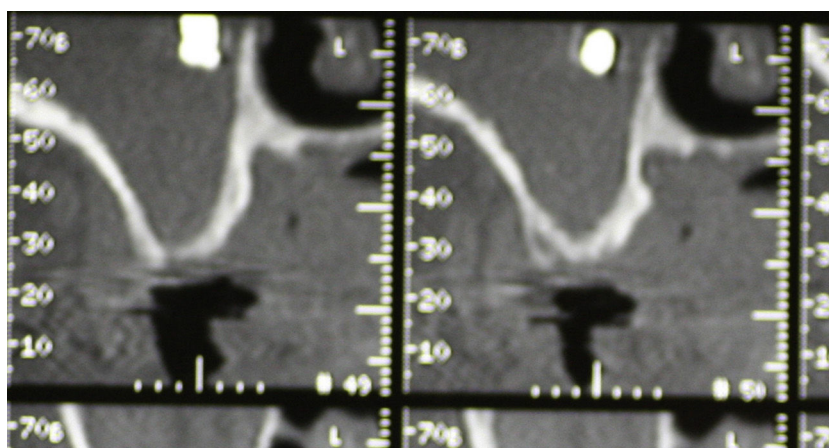


Figura 3 – Cortes de DentaScan del caso 2, en los que se observa la imagen de bola fúngica intrasinusal y la afectación de la mucosa adyacente.

Discusión

La rinosinusitis fúngica se ha clasificado de maneras distintas a lo largo de la historia a medida que se han ido conociendo más datos de esta enfermedad. Hora et al., en 1965, publican el primer intento de clasificar estos cuadros; desde entonces múltiples autores han ido proponiendo nuevos cuadros clínicos y nuevas clasificaciones que no siempre han aportado mayor claridad a la hora de manejar los distintos procesos.

En el año 2008 la Sociedad Internacional de Micología Humana y Animal forma un grupo de trabajo con el objetivo de aunar las distintas clasificaciones y consensuar las características de los cuadros clínicos bajo la denominación de rinosinusitis fúngicas.

En septiembre de 2009 publican el texto definitivo en el que determinan la clasificación más aceptada de rinosinusitis fúngicas, divididas en 2 grandes grupos: invasivas y no invasivas, en función de la colonización de los tejidos por los hongos³.

Dentro del grupo de las RSF invasivas encontramos:

- Invasiva aguda o fulminante.
- Invasiva crónica.
- Invasiva granulomatosa.

Dentro de las RSF no invasivas encontraremos:

- Infección fúngica saprofita.
- Bola fúngica.
- RSF eosinofílica relacionada con hongos (que incluye la RSF alérgica).

Los 2 casos presentados se pueden clasificar dentro de las RSF no invasivas del tipo bola fúngica sinusal, caracterizado por la presencia de un conglomerado de hifas de gran densidad que no llegan a invadir en profundidad los tejidos circundantes, sino que se acumulan sobre la mucosa del seno.

Los cuadros de bolas fúngicas intrasinasales están definidos por los siguientes criterios^{4,5}:

- Evidencia radiológica de opacificación sinusal, asociada o no a calcificaciones.
- Material mucopurulento denso intrasinal.
- Conglomerado de hifas en contacto con la mucosa sinusal pero sin invadirla.
- Inflamación crónica de la mucosa.
- Ausencia de invasión fúngica de la mucosa, vasos o hueso.

Estos cuadros aparecen con mayor frecuencia en mujeres en edades medias y finales de la vida y en casi todos los casos se localizan en el seno maxilar de manera unilateral, de forma similar a los casos presentados.

Son la causa más frecuente de sinusitis crónica unilateral resistente al tratamiento antibiótico, lo que hace necesario descartar una rinosinusitis fúngica en pacientes con diagnóstico de rinosinusitis bacteriana que no mejora con tratamiento.

En pacientes inmunocompetentes la RSF no invasiva cursará de forma larvada, con clínica similar a una rinosinusitis bacteriana, mientras que en pacientes inmunocomprometidos puede progresar hacia una forma invasiva y muy destructiva que puede incluso comprometer la vida del paciente.

Para el diagnóstico utilizaremos la rinoscopia directa en los casos en los que sea posible, y pruebas de imagen, donde la TC es la que más información nos ofrece. Pueden existir casos, como los presentados en este artículo, en los que aparezcan imágenes intrasinasales de radioopacidad metálica, ya que las hifas fúngicas se componen de gran cantidad de agua, proteínas y lípidos, con cantidades de calcio variables y con alto contenido en metales como cinc, plomo, cobre o plata⁶. El diagnóstico definitivo nos lo dará el resultado histopatológico, ya que el 70% de los cultivos suelen ser negativos, como ocurrió en nuestros casos. El patógeno aislado con más frecuencia es el *Aspergillus fumigatus*⁷.

Ante la sospecha de una bola fúngica sinusal el tratamiento más adecuado será la eliminación de la misma, así como de la mucosa sinusal afectada. Para la extirpación quirúrgica de bolas fúngicas se puede optar por cirugía abierta o endoscópica. En los últimos años la vía endoscópica está superando a la antrostomía sinusal en el tratamiento de la enfermedad inflamatoria e infecciosa sinusal. En nuestros 2 casos se decidió el abordaje a través de la mucosa vestibular maxilar debido a que se preveían dificultades a la hora de extraer cuerpos extraños de gran calibre y dudosa consistencia a través de la vía endoscópica, y la mayor experiencia en nuestro centro en esta vía de abordaje en la época de presentación de ambos casos. No es necesario tratamiento antimicótico sistémico mientras no exista compromiso en la inmunidad del paciente y/o invasión de las estructuras adyacentes⁸. En la paciente número 1, pese su estado de inmunocompetencia, la presencia de infiltración a nivel de la mucosa sinusal nos instó a consultar con el servicio de enfermedades infecciosas, que recomendaron la administración de un tratamiento antibiótico y antifúngico intravenoso de forma empírica hasta que los patólogos filiaran el hongo y descartaran una actividad invasiva. A los pocos días de tratamiento la estabilidad clínica de la paciente, así como los estudios anatomopatológicos definitivos, permitieron el alta con seguimiento ambulatorio.

Los principales tratamientos antimicóticos que pueden utilizarse en estos casos son: polienos (anfotericina B y nistatina), azoles (clotrimazol, ketoconazol, voriconazol...), flucitosina y terbinafina. La anfotericina B continúa siendo el fármaco de elección en la mayoría de los tratamientos sistémicos, pese a su amplio espectro de efectos secundarios. Tras un tratamiento adecuado se han observado tasas de recidivas muy bajas.

Los principales tratamientos antimicóticos que pueden utilizarse en estos casos son: polienos (anfotericina B y nistatina), azoles (clotrimazol, ketoconazol, voriconazol...), flucitosina y terbinafina. La anfotericina B continúa siendo el fármaco de elección en la mayoría de los tratamientos sistémicos, pese a su amplio espectro de efectos secundarios. Tras un tratamiento adecuado se han observado tasas de recidivas muy bajas.

Conclusión

La ocupación fúngica de los senos es una enfermedad relativamente infrecuente. Tenemos que tenerla en cuenta a la hora de manejar cuadros crónicos de rinosinusitis que no mejoran con el tratamiento antibacteriano y sobre todo en casos de pacientes inmunodeprimidos, en los que pueden producir cuadros muy invasivos y destructivos.

Los casos de bolas fúngicas intrasinasales cursan de forma asintomática o poco sintomática, por lo que su diagnóstico se puede enmascarar, llegando a convertirse en grandes for-

maciones de hifas. Estos conglomerados de hifas, por su alto contenido en metales como el Zn, Pb, Ag o Cu pueden ofrecer imágenes de radioopacidad metálica que se asemejan a cuerpos extraños intrasinales. Ante imágenes intrasinales con radioopacidad metálica en las pruebas de imagen debemos incluir las bolas fúngicas dentro del diagnóstico diferencial.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

1. Sridhara SR, Paragache G, Panda NK, Chakrabarti A. Mucormycosis in immunocompetent individuals: An increasing trend. *J Otolaryngol.* 2005;34:402-6.
2. Mitchell TG. Generalidades sobre micología médica básica. *Otolaryngol Clin North Am.* 2000;2:225-36.
3. Chakrabarti A, Denning DW, Ferguson BJ. Fungal rhinosinuitis: A categorization and definitional schema. Addressing current controversies. *Laryngoscope.* 2009;119:1809-18.
4. De Shazo RD, O'Brien M, Chapin K, Soto-Aguilar M, Swain R, Lyons M, et al. Criteria for the diagnosis of sinus mycetoma. *J Allergy Clin Immunol.* 1997;99:475-85.
5. Plaza G, Toledano A, Plaza A, Oliete S, Noriega J, Galindo N. Sinusitis fúngicas no invasivas: sinusitis fúngica alérgica y micetomas sinasales. *Acta Otorrinolaring Esp.* 2000;51: 603-12.
6. Pradillos Garcés A, González Lagunas J, Martínez Fuster X, Mareque Bueno J, Raspall Martín G, Umbert Massegur H. Aspergilosis simulando cuerpo extraño intrasinal. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2006;28:127-30.
7. Challa S, Uppin SG, Hanumanthu S, Panigrahi MK, Purohit AK, Sattaluri S, et al. Fungal rhinosinuitis: A clinicopathological study from South India. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2010;267:1239-45.
8. Lund VJ, Lloyd G, Savy L, Howard D. Fungal rhinosinuitis. *J Laryngol Otol.* 2002;114:76-80.