

INVESTIGACIÓN CLÍNICA APLICADA

CIRUGÍA ENDOSCÓPICA NASOSINUSAL EN LA SINUSITIS FÚNGICA. NUESTRA EXPERIENCIA

I. ALOBID*, M. BERNAL*, L. M. MENÉNDEZ*, L. ALÓS**, P. BENÍTEZ*, A. CARDESA**, J. MULLOL*

*UNIDAD DE RINOLOGÍA, SERVICIO DE OTORRINOLARINGOLOGÍA. **SERVICIO DE ANATOMÍA PATOLÓGICA.

HOSPITAL CLÍNIC. BARCELONA.

RESUMEN

La sinusitis fúngica es una entidad poco frecuente que se ha incrementado en los últimos años en individuos inmunocompetentes. Presentamos nuestra experiencia en trece pacientes tratados entre 1995-2001. El estudio anátomo-patológico demostró afectación por *Aspergillus* en ocho pacientes y por *Mucormycosis* en otros cinco. El tratamiento de la sinusitis fúngica fue el debridamiento quirúrgico por técnica endoscópica. El seguimiento clínico es de

12 a 72 meses (media 29,08 meses). Se describen las principales características de la presentación clínica y se hace una revisión de la literatura. Concluimos que la cirugía endoscópica nasosinusal es muy eficaz en el tratamiento de la sinusitis fúngica, excepto los casos avanzados de mucormycosis en los que un abordaje mixto (externo-endonasal) es necesario conjuntamente con tratamiento antifúngico intravenoso (anfotericina B).

PALABRAS CLAVE: Sinusitis fúngica. Cirugía endoscópica. *Aspergillus*. *Mucormycosis*

ABSTRACT

ENDOSCOPIC SINUS SURGERY IN FUNGAL SINUSITIS. OUR EXPERIENCE

Fungal sinusitis is a rare entity which has increased amongst immunocompromised individuals. Records of thirteen patients treated of fungal sinus disease between 1995 and 2001 were reviewed. Histopathological studies demonstrated infection due to *Aspergillus* in eight patients and due to *Mucormycosis* in five patients. The surgical debridement via endoscopic sinus surgery was

the essential part of the management. The follow-up is 12-72 months (mean 29,08). The main clinical findings and a review of the literature are presented. We conclude that endoscopic sinus surgery is the treatment of choice for fungal sinusitis except in advanced cases of mucormycosis in which a combined approach is still necessary together with intravenous antifungal drugs (amphotericin B).

KEY WORDS: Fungal sinusitis. Endoscopic surgery. *Aspergillus*. *Mucormycosis*

Correspondencia: I. Alobid. Departamento de Otorrinolaringología. Hospital Clínic. C/ Villarroel, 170. 08036 Barcelona.

E-mail: 32874iao@comb.es

Fecha de recepción: 17-9-2001

Fecha de aceptación: 4-3-2002

INTRODUCCIÓN

La sinusitis fúngica (SF) es un padecimiento poco frecuente, sin embargo, existe un aumento en la incidencia del diagnóstico desde hace algunos años¹.

La SF comprende una extensa variedad de entidades patológicas con diferente expresión clínica cuyo denominador común es la presencia de hongos en los senos paranasales. La SF es una entidad de evolución crónica (excepto la forma fulminante), clínica inespecífica y de difícil diagnóstico. El cultivo de la muestra obtenida permite la identificación del hongo y el diagnóstico se establece definitivamente mediante el estudio anatómo-patológico. La cirugía es el tratamiento de elección y las técnicas endonasales de cirugía endoscópica son las indicadas de forma primaria. La rápida evolución de las técnicas endoscópicas en la cirugía endoscópica nasosinusal (CENS) ha ampliado en los últimos años la lista de indicaciones entrando en nuevos campos que eran hasta ahora terreno prohibido. En los últimos años ha habido una auténtica revolución en la cirugía endoscópica. Los endoscopios fueron utilizados como herramientas diagnósticas y de exploración, pero después y gracias al excelente abordaje y visualización rápidamente se empezó a utilizar en la CENS para lograr un adecuado drenaje. En España la CENS fue introducida por Massegur y Ademá², así como por Bernal y Sprekelsen³. Desde hace cuatro años se introdujo la técnica CENS en nuestro servicio como terapia estandarizada para algunos casos de SF.

MATERIAL Y MÉTODO

Presentamos nuestra experiencia en el diagnóstico y el tratamiento de la SF a propósito de 13 pacientes estudiados retrospectivamente entre 1995-2001, así como el protocolo diagnóstico y terapéutico de las sinusitis fúngica (tabla 1). A todos los pacientes se les practica una exploración metódica mediante endoscopia nasal. La TC muestra ocupación de los senos afectados y el estudio anatomopatológico confirma el diagnóstico. El desbridamiento quirúrgico vía endoscopia nasosinusal fue realizado en todo los pacientes excepto en algunos casos avanzados de Mucormicosis.

RESULTADOS

En los últimos 6 años, 13 pacientes (9 hombres y 4 mujeres) fueron diagnosticados de SF. La edad

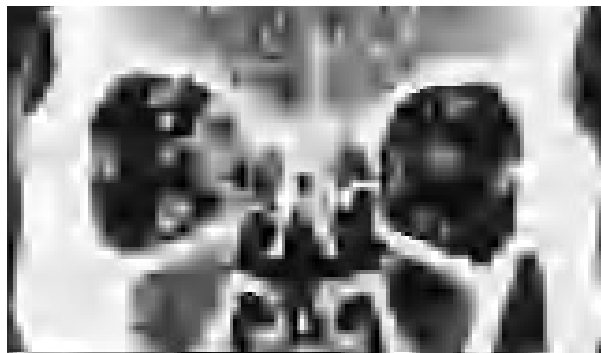


Figura 1. Invasión orbitaria por Mucormicosis nasosinusal donde se observa la destrucción de la lámina papirácea derecha (flecha).

media es de 58 años (rango 39-83). La sospecha clínica y radiológica mediante TC (figuras 1,2) se confirmó por el estudio anatomopatológico. La afectación por *Aspergillus* fue demostrada en 8 pacientes con la presencia de abundantes hifas micóticas en material mucoide (tinción con plata metenamina) y la Mucormicosis (3 *Mucor* y 2 *Rhizopus*) en otros 5 pacientes con las típicas hifas del ángulo recto (tinción con hematoxilina-eosina) (figuras 3, 4). Todos los pacientes presentaron afectación unilateral y fueron intervenidos mediante cirugía endoscópica con excelentes resultados. La exenteración orbitaria fue realizada en sólo dos pacientes afectados de Mucormicosis con extensión a la órbita. Un paciente presentó una fístula cefalorraquídea como complicación de la Mucormicosis por lo que fue intervenido de desbridamiento y cierre de dicha fístula mediante CENS (figura 5). Otro paciente presentó trombosis parcial de la carótida interna sin mayores consecuencias. Se administró anfotericina B a los pacientes con Mucormicosis y la anfotericina liposomal en otros dos pacientes con antecedentes de insuficiencia hepática y renal. Todos los pacientes fueron sometidos a curas endoscópicas semanales exhaustivas, en las que se retiraron los esfacelos y el material necrótico. El seguimiento clínico y radiológico postoperatorio, media de 29,08 meses (entre 12-72), no evidenció recidiva en ningún paciente.

DISCUSIÓN

Las diferentes modalidades de la enfermedad se deben a las condiciones inmunológicas del huésped, así como a las condiciones locales de las cavidades sinusales en lo que se refiere a ventilación, pH, acúmulo de mucina, movilidad nasociiliar e integridad de la mucosa que, en caso de

Tabla 1

Nº	Sexo	Edad	Antecedentes	Manifestación clínica	Lado	AP	Trata. médico	Cirugía	Control
1	M	75	DMIND	Cornete necrótico, úlcera paladar, oftalmoplegia, ceguera	Izq.	Mucor	Anfotericina B	Palatotomía, Caldwell-Luc, exenteración orbitaria	6 años SER
2	H	60	No	Rinorrea, dolor sinusal crónico	Izq.	Aspergillus	Ninguno	CENS	4 años SER
3	H	46	DMID	Rinorrea sanguinolenta, celulitis orbitaria, quemosis, ceguera	Der.	Rhizopus	Anfotericina B	Caldwell-Luc, exenteración orbitaria	4 años SER
4	H	68	DMID	Tabique y cornete necróticos, quemosis, ceguera	Der.	Mucor	Anfotericina B	CENS	4 años SER
5	M	42	No	Rinorrea, dolor sinusal crónico	Der.	Aspergillus	Ninguno	CENS	3 años SER
6	H	52	DMIND, TH	Rinorrea, dolor sinusal crónico	Der.	Aspergillus	Ninguno	CENS	MOE
7	M	56	No	Rinorrea	Izq.	Aspergillus	Ninguno	CENS	2 años SER
8	H	48	No	Rinorrea, episodios de sinusitis aguda	Izq.	Aspergillus	Ninguno	CENS	2 años SER
9	H	83	DMID	Rinorrea sanguinolenta, proptosis, ceguera	Der.	Mucor	Anfotericina B	CENS	2 años SER
10	H	72	No	Rinorrea	Izq.	Aspergillus	Ninguno	CENS	2 años SER
11	M	62	DMID	Necrosis endonasal, proptosis, oftalmoplegia, ceguera	Der.	Rhizopus	Anfotericina B	CENS	12 meses SER
12	H	52	DMIND, TH	Rinorrea, dolor sinusal crónico	Der.	Aspergillus	Ninguno	CENS	MOE
13	H	39	No	Rinorrea	Izq.	Aspergillus	Ninguno	CENS	12 meses SER

M: Mujer. H: Hombre. DMIND: Diabetes Mellitus Insulino-No Dependiente. DMID: Diabetes Mellitus Insulino-Dependiente. TH: Transplante Hepático. Der: Derecho. Izq.: Izquierdo. CENS: Cirugía Endoscópica Nasosinusal. SER: Sin Evidencia de Recurrencia. MOE: Muerte por Otra Enfermedad.

afección, resultan un medio ideal para la proliferación de hongos⁴. La sospecha de SF basada preoperatoriamente en la clínica y la radiología se confirmará por el estudio anatomopatológico.

Podemos distinguir cuatro formas principales

de sinusitis fúngica: alérgica, aguda fulminante, crónica invasiva, y crónica no invasiva (bola fúngica).

1) Sinusitis fúngica alérgica (SFA): Millar⁵ presentó cinco pacientes afectados de sinusitis crónica

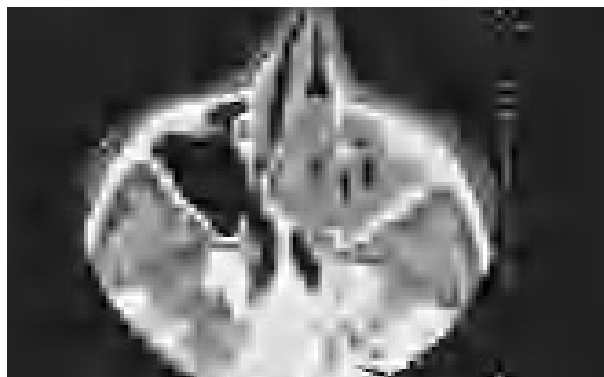


Figura 2. Bola fúngica en seno maxilar izquierdo donde se observan las calcificaciones (flecha).



Figura 3. Presencia de abundantes hifas de *Aspergillus* en material mucoide (tinción con plata metenamina X 200).

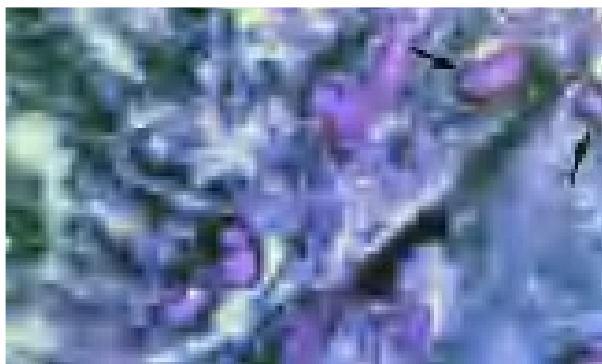


Figura 4. Presencia de las típicas hifas del ángulo recto de Mucormicosis (tinción con hematoxilina-eosina X400).



Figura 5. Presencia de fistula cefalorraquídea como complicación de la Mucormicosis (flechas).

que presentaban características anatomopatológicas idénticas a la Aspergilosis broncopulmonar alérgica y cultivos positivos para *Aspergillus*, conociéndose a esta entidad como "Aspergilosis alérgica sinusal". Más tarde Katzenstein⁶ describió el síndrome de sinusitis alérgica por *Aspergillus* en pacientes inmunocompetentes con historia de asma y sinusitis recurrente y, por último, fue Robson⁷ quien introdujo el nombre actual de sinusitis alérgica fúngica al comprobar en los cultivos la existencia de otras especies de hongos además de *Aspergillus*. Afecta típicamente a pacientes jóvenes inmunocompetentes aunque puede darse a cualquier edad⁸. El diagnóstico de SFA se hace mediante la demostración anatomopatológica de mucina alérgica e hifas fúngicas sin evidencia de invasión tisular o demostración de mucina alérgica y cultivos positivos para formas fúngicas⁶. Un estudio realizado por Cody⁹ demuestra que el 27% de los pacientes tienen hipersensibilidad al AAS y poliposis nasal en el 100% de los casos. En todos los pacientes la TC muestra pansinusitis con tendencia a la bilateralidad sin implicar invasión. En las pruebas de laboratorio destaca una eosinofilia y un aumento de la IgE, aumento de la IgG, precipitinas séricas positivas e hipersensibilidad cutánea inmediata a hongos^{10,11}. Su tratamiento es quirúrgico y consiste en el restablecimiento del drenaje sinusal mediante cirugía y especialmente la endonasal. Algunos autores recomiendan un tratamiento médico corticoideo por vía oral a diario o de una forma alterna¹². En nuestra serie cinco pacientes fueron diagnosticados de SFA y posteriormente intervenidos mediante CENS sin necesidades de tratamiento médico.

2) Sinusitis aguda fúngica fulminante (mucormicosis): Se caracteriza por la invasión mucosa rinosinusal por formas fúngicas y una tendencia a invadir estructuras endocraneales y orbitarias por

vía vascular. Se da en pacientes inmunodeprimidos o con cetoacidosis metabólica. En los últimos años la población de riesgo está creciendo debido al aumento del número de casos de VIH y de personas que reciben un tratamiento inmunosupresor^{13,14}. Su mortalidad oscila entre el 50-80% de los casos¹⁵, lo que hace necesario un diagnóstico precoz que sospecharemos en un paciente inmunocomprometido con una clínica de fiebre, edema facial, cefalea, tos, rinorrea y/o epistaxis¹⁶. Dada su evolución fulminante, con oftalmoplejia, parálisis facial o proptosis, requiere una exploración nasosinusal meticulosa mediante endoscopia nasal rígida con la que observaremos cambios en la coloración normal, granulaciones y/o ulceraciones en la mucosa rinosinusal, siendo el cornete medio la estructura que más frecuentemente presenta estos cambios¹⁷. El hallazgo más frecuente es la presencia de una necrosis tisular, de color gris blanquecina. Debe iniciarse cuanto antes tratamiento con anfotericina a altas dosis intravenosa, más un tratamiento quirúrgico agresivo. Recientemente la cirugía endoscópica nasosinusal ha demostrado su eficacia, sobre todo en el comienzo de la enfermedad¹⁸. En nuestro servicio, la histopatología demostró afectación por mucormicosis en cinco pacientes; tres de ellos fueron intervenidos mediante CENS sin exenteración orbitaria. El tratamiento médico fue necesario en todos los casos con anfotericina B (>1,5 mg/Kg/día).

3) Sinusitis fúngica invasiva: Se caracteriza por la invasión tisular, resultando en destrucción ósea, con extensión dentro de la órbita o el cerebro. Afecta a pacientes diabéticos mal controlados con cetoacidosis, VIH y pacientes inmunodeprimidos debido a enfermedades hematológicas, corticoterapia prolongada o drogas citotóxicas. La clínica es rápidamente progresiva con cefalea, fiebre, obstrucción nasal y rinorrea serosanguinolenta. La

afectación de la mucosa se encuentra frecuentemente asociada a una reacción de tipo osteítico del tejido óseo subyacente creando posiblemente círculo vicioso que vuelve a repercutir en la estimulación inflamatoria de su mucosa¹⁹. La infección se disemina por vía hematógena con invasión y penetración de las paredes vasculares causando trombosis y necrosis. El compromiso intracraneal puede ocurrir por trombosis de las venas adyacente, por aneurisma fúngico o por trombosis de la carótida interna. Su pronóstico es grave por su posible extensión hacia la órbita, presentando proptosis y oftalmoplejia, o hacia el cráneo. La TC muestra un aumento de densidad de los tejidos blandos sinusales asociado a áreas de erosión ósea. El diagnóstico definitivo es anatomopatológico y su tratamiento es quirúrgico agresivo.

4) Sinusitis crónica no invasiva (bola fúngica): Afecta a pacientes inmunocompetentes y su clínica es de obstrucción nasal, rinorrea mucopurulenta, sensación de plenitud facial y dolor facial. En la TC se observa una imagen similar a un cuerpo extraño calcificado muestra una opacidad total y heterogénea con áreas de mayor densidad y erosión ósea variable debido a la presión ejercida sobre la pared sinusal. El seno más frecuente afectado es el maxi-

lar, aunque se puede presentar en el seno esfenoidal o frontal, y existe tendencia a la unilateralidad^{1,11}. Suele comenzar como una infección dentaria o ser secundaria a una fístula oroantral²⁰. Su diagnóstico definitivo es anatomopatológico. El tratamiento es quirúrgico vía endoscópica con extracción de las masas fúngicas y drenaje del seno afecto. En nuestra serie, tres pacientes fueron diagnosticados de micetoma maxilar unilateral los cuales fueron intervenidos mediante CENS. En ninguno de los casos se aplicó tratamiento médico complementario.

CONCLUSIÓN

La SF comprende una extensa variedad de entidades patológicas con diferentes expresión clínica cuyo denominador común es la presencia de hongos en los senos paranasales. Su diagnóstico requiere un alto índice de sospecha clínico y anatómo-patológico. El tratamiento de la SF es del debridamiento quirúrgico por técnica endoscópica, excepto en los casos avanzados de mucormicosis, para lograr un adecuado drenaje. La rápida evolución de las técnicas endoscópicas en la CENS ha hecho que cada vez se utilizan con más seguridad y eficacia en el tratamiento de la SF.

REFERENCIAS

- 1.- De Carpentier JP. An algorithmic approach to aspergillus sinusitis. The journal of Laryngology Otol 1994; 108: 314-18.
- 2.- Adema JM, Masegur H, Fabra JM, Montserrat JM. Cirugía endoscópica nasosinusal. Experiencia en 150 casos. Anales ORL Iber-Amer 1991; 18: 505-515.
- 3.- Bernal M, Sprekelsen C. Cirugía endoscópica nasosinusal. Aspecto técnicos. Acta Otorrinolaringol Esp 1991; 42(4): 227-232.
- 4.- Schubert MS, Goetz DW. Evaluation and treatment of allergic fungal sinusitis. I. Demographic and diagnosis. J Allergy Clin Immunol 1998; 102: 387-94.
- 5.- Millar W, Johnston A, Lamb D. Allergic Aspergillosis of the Maxillary sinuses. Prod Scot Thor Soc, 1981; 36: 710.
- 6.- Katzenstein A, Sale SR, Greenberger PA. Allergic Aspergillus sinusitis: A newly recognized form of sinusitis. J Allergy Clin Immunol 1983; 72: 89-93.
- 7.- Robson JMB, Benn RAV, Hogan PG. Allergic fungal sinusitis presenting as a paranasal sinus tumour. Aust NZ J Med 1989; 19: 351-3.
- 8.- Waxman JE, Spector JG, Sale SR. Allergic Aspergillus sinusitis: concepts in diagnosis and treatment of a new clinical entity. Laryngoscope 1987; 97: 261-6.
- 9.- Thane Cody D. Allergic fungal sinusitis: The Mayo Clinic Experience. Laryngoscope 1994; 104: 1074-79.
- 10.- Percodani J, Serrano E, Uro-Coste E. La sinusite Aspergillaire allergique existe-t-elle?. Ann Otolaryngol Chir Cervicofac 1999; 116: 78-84.
- 11.- Gómez Llorens T, Palomar V, Ruiz Giner A, Latorre J, Romeu C. Sinusitis fúngica. A propósito de cuatro casos. Acta Otorrinolaringol Esp 1998; 49(3): 241-4.
- 12.- Mabry RL, Marple BF. Outcomes after discontinuing immunotherapy for allergic fungal sinusitis. Otolaryngol Head Neck Surg 1999; 122: 104-05.
- 13.- Bradwein M. Histopathology of sinonasal fungal disease. Otolaryngologic Clinics North Am 1993; 26: 949-81.
- 14.- Denning DW, Stevens DA. Anti-fungal and surgical treatment of invasive aspergillosis: Review of 2121 published cases. Rev Infect Dis 1990; 12: 1147-1201.
- 15.- Waitzman AA, Birt BD. Fungal sinusitis. J Otolaryngol 1994; 23: 244-49.
- 16.- Berlinger NT. Sinusitis in immunodeficient and immunosuppressed patients. Laryngoscope 1985; 95: 29-33.
- 17.- Boyd Gillespie M, O'Malley BW, Francis HW. An Approach to Fulminant Invasive Fungal Rhinosinusitis in the Immunocompromised Host. Otolaryngol Head and Neck Surgery 1998; 124: 520-526.
- 18.- Alobid I, Bernal M, Calvo C, Vilaseca I, Berenguer J, Alós L. Treatment of rhinocerebral Mucormycosis by combination of endoscopic sinus debridement and Amphotericin B. Am J Rhinology 2001; 15: 327-331.
- 19.- Bernal M, Benítez P, Huerta P. Etiología de la sinusitis fúngica. En: C Escobar, M Tomás, M Bernal. Ed. Raboso. "Sinusitis crónica y poliposis" 2002: 31-34.
- 20.- Dahniya MH, Makkar R, Grexa E, Cherian J, Al Marzouk N. Appearances of paranasal fungal sinusitis on computed tomography. Br J Radiol 1998; 71(843): 340-4.