

Bola fúngica de cavidades paranasales. Serie de casos

Fungus ball of the paranasal sinuses. Case Series

Soledad Palma R¹, Claudia Heider C¹, Tamara Muñoz M¹, Antonia Lagos V¹, Ximena Fonseca A¹,
Claudio Callejas C¹, Claudia Gonzalez G¹.

RESUMEN

Introducción: La bola fúngica (BF) es una sinusitis fúngica no invasiva, con acumulación extramucosa de conglomerados densos de hifas de hongos en cavidades paranasales (CPN), afectando generalmente a mujeres inmunocompetentes.

Objetivo: Describir la presentación clínica, diagnóstico y tratamiento de una serie de pacientes con diagnóstico de BF de CPN.

Material y método: Estudio descriptivo retrospectivo de pacientes con diagnóstico histopatológico de BF sometidos a cirugía endoscópica nasal (CEN) en nuestra institución entre 2010 y 2016.

Resultados: Se incluyeron 20 pacientes (15 mujeres, 5 hombres), con edad promedio al diagnóstico de 64 años (35-86 años), la mayoría inmunocompetente (85%). El síntoma más frecuente fue dolor facial (8/20). Todos los pacientes fueron estudiados con tomografía computarizada (TC) de CPN, presentando calcificaciones en 70%. La ubicación más frecuente fue el seno maxilar (12/20) y luego esfenoidal (6/20). Se realizó CEN en todos los pacientes, combinándolo con Caldwell Luc en 3 de ellos. Los cultivos intraoperatorios resultaron negativos en el 75% de los pacientes.

Conclusión: La BF tiene presentación clínica inespecífica. Se sospecha en base a hallazgos imagenológicos en la TC de CPN y se confirma histopatológicamente, dado el bajo rendimiento de los cultivos. La CEN es la herramienta diagnóstico-terapéutica de elección, con baja tasa de recidiva local.

Palabras clave: Bola fúngica, sinusitis fúngica.

ABSTRACT

Introduction: A fungus ball (FB) is a non-invasive fungal sinusitis, consisting of extramucosal accumulation of dense fungal hyphae conglomerates, located in paranasal sinuses. It generally affects immunocompetent women.

Aim: To describe the clinical presentation, diagnosis and treatment in a series of patients diagnosed with FB of paranasal sinuses.

Material and method: Retrospective descriptive study regarding all patients with a histopathologic diagnosis of FB, who underwent endoscopic sinus surgery (ESS) in our institution between 2010 and 2016.

¹ Médicos del Departamento de Otorrinolaringología de la Pontificia Universidad Católica de Chile.

Results: Twenty patients (15 women, 5 men) were included, with a mean age at diagnosis of 64 years (35-86 years). Most were immunocompetent (85%). Facial pain was the most frequent symptom (8/20). All patients were studied with a sinus CT, finding paranasal calcifications in 70%. It predominantly involved the maxillary (12/20), and sphenoid sinus (6/20). All patients were treated with ESS, with a combined Caldwell Luc approach in only 3 of them. Intraoperative cultures were negative in 75% of patients.

Conclusions: Sinus FB has a non-specific clinical presentation. CT findings help suspect it, and it is confirmed with a histopathological study, given the poor efficiency of cultures. ESS is the diagnostic-therapeutic procedure of choice, with a low local recurrence rate.

Key words: Fungal sinusitis; fungus ball.

INTRODUCCIÓN

Las rinosinusitis fúngicas se clasifican en invasivas y no invasivas. La bola fúngica corresponde a este último grupo y se define como la acumulación extramucosa de conglomerados densos de hifas de hongos en cavidades paranasales. Los términos “aspergiloma” o “micetoma” se han ocupado indistintamente en la literatura para referirse a esta patología, pero el mejor conocimiento de la fisiopatología ha dado lugar a una actualización de la terminología, recomendando el uso del término “bola fúngica”¹.

La enfermedad se define por los siguientes criterios: evidencia radiológica de opacificación sinusal con o sin heterogeneidad radiográfica; acumulación de material mucopurulento caseoso o arcilloso dentro del seno; conglomerado denso de hifas separadas de la mucosa sinusal e inflamación crónica inespecífica de la mucosa sin evidencia de invasión fúngica, de mucina alérgica ni predominio de eosinófilos². Afecta generalmente a mujeres inmunocompetentes y en el 80% de los casos se localiza en el seno maxilar.

A nivel internacional existe una serie de publicaciones respecto a esta patología³⁻⁶, pero ninguna en población chilena. El objetivo de este trabajo es describir la presentación clínica, diagnóstico y tratamiento de una serie de pacientes chilenos con diagnóstico de bola fúngica de cavidades paranasales.

MATERIAL Y MÉTODO

Estudio descriptivo retrospectivo de fichas clínicas. Se incluyeron los pacientes con diag-

nóstico histopatológico de bola fúngica sometidos a cirugía endoscópica nasal (CEN) en el Departamento de Otorrinolaringología de la Pontificia Universidad Católica de Chile entre los años 2010 y 2016. Se registraron características demográficas, presentación clínica, localización de la enfermedad, hallazgos imagenológicos, estudio histopatológico, cultivos intraoperatorios, tratamiento quirúrgico, complicaciones y evolución clínica de la enfermedad. Se excluyeron pacientes con diagnóstico de rinosinusitis fúngica invasiva o sinusitis fúngica alérgica y aquellos con registros clínicos incompletos. Se analizaron los datos mediante estadística descriptiva, con medidas de tendencia central y rangos. El protocolo de este estudio cuenta con aprobación del Comité Ético Científico de la Facultad de Medicina de la Pontificia Universidad Católica de Chile.

RESULTADOS

Se incluyeron 20 pacientes (15 mujeres y 5 hombres) con edad promedio al diagnóstico de 64 años (rango de 35 a 86 años). El síntoma más frecuentemente reportado por los pacientes fue dolor facial (8/20), seguido por cefalea (5/20), descarga nasal (5/20) y obstrucción nasal (5/20) (Tabla 1).

El tiempo promedio de evolución desde el inicio de los síntomas al diagnóstico fue de 10,4 meses (rango de 0 a 70 meses). Cuatro pacientes fueron asintomáticos, siendo el diagnóstico de bola fúngica un hallazgo imagenológico durante el estudio de otra patología. El 85% de los pacientes

Tabla 1. Presentación clínica

Síntomas	N	%
Dolor facial	8	40
Cefalea	5	25
Descarga nasal	5	25
Obstrucción nasal	5	25
Asintomático	4	20
Otros	3	15
Cacosmia	1	5

de la muestra eran inmunocompetentes. Respecto a los pacientes inmunosuprimidos, todos eran de causa secundaria a tratamientos de enfermedades reumatológicas.

Todos los pacientes fueron estudiados con tomografía computarizada de cavidades paranasales (TC de CPN). Los hallazgos imagenológicos más frecuentes fueron la presencia de calcificaciones (14/20) y esclerosis ósea (12/20). Sólo 10% de los pacientes presentó erosión ósea. Se complementó el estudio con resonancia magnética (RM) de cerebro por duda diagnóstica en 5 pacientes (4 con compromiso de seno esfenoidal), 2 de los cuales presentaron ausencia o disminución de señal en T2. La localización de la bola fúngica y su abordaje quirúrgico se describen en la Tabla 2.

La ubicación más frecuente correspondió al seno maxilar unilateral (12/20), seguido por compromiso del seno esfenoidal (6/20). De aquellos con compromiso maxilar unilateral, el 20% tenía

antecedente de procedimiento dental ipsilateral. El compromiso de seno frontal y etmoidal fue menor, observándose un caso para cada uno.

En el análisis de hallazgos imagenológicos según ubicación de la bola fúngica, destacó mayor frecuencia de calcificaciones en senos maxilares (83%) y de esclerosis en senos esfenoidales (83%). La erosión ósea sólo se presentó en pacientes con compromiso esfenoidal (Tabla 3).

Todos los pacientes fueron sometidos a CEN. En 3 de ellos se complementó con técnica abierta (Cadwell Luc). El seno comprometido fue abierto ampliamente y se removió cuidadosamente su contenido. Se realizó irrigación con abundante solución fisiológica y todas las muestras obtenidas fueron enviadas a estudio histopatológico y cultivo de hongos.

Los cultivos fueron negativos en el 75% de los casos, sólo 5 de los pacientes presentaron cultivos positivos para hongos, todos ellos del gé-

Tabla 2. Localización de la bola fúngica

Localización	N	Tratamiento
Seno maxilar unilateral	12	Antrostomía maxilar con o sin Cadwell-Luc
Seno esfenoidal	6	Esfenoidotomía
Seno etmoidal	1	Etmoidectomía
Seno frontal	1	Cirugía del seno frontal

Tabla 3. Hallazgos a la TC de CPN según localización

Localización	Calcificaciones	Esclerosis	Erosión ósea
Maxilar N =12	10/12	7/12	0/12
Esfenoidal N =6	3/6	5/6	2/6
Etmoidal N =1	1/1	0/1	0/1
Frontal N =1	0/1	0/1	0/1

nero *Aspergillus*. Se realizó estudio calcoflúor en 9 pacientes, con hallazgos positivos para elementos fúngicos (hifas septadas o aseptadas) en 7 de ellos. El estudio anatomopatológico de la muestra mostró elementos fúngicos en el 100% de los casos estudiados.

El manejo posoperatorio incluyó irrigaciones nasales de alto volumen y baja presión y curaciones bajo visión endoscópica en todos los pacientes. El seguimiento desde la cirugía fue en promedio de 10,1 meses (rango de 0 a 28 meses). En este período no se observaron recurrencias ni complicaciones secundarias a la cirugía.

DISCUSIÓN

La bola fúngica es la presentación más habitual de la rinosinusitis fúngica no invasiva. Ocurre preferentemente en pacientes inmunocompetentes, sin claros factores predisponentes. Si bien se ha planteado la asociación entre procedimientos dentales y la aparición de esta patología⁷, no existen estudios prospectivos que lo confirmen. Al igual que en datos recolectados de la literatura^{3,4,6}, en nuestra muestra se observó una mayor frecuencia de bola fúngica en seno maxilar unilateral, pero solo 20% de éstos habían cursado un procedimiento dental ipsilateral.

Se desconoce la prevalencia de bola fúngica en la población general, pero se cree que iría en aumento en las últimas décadas. Esto pudiera deberse a una mayor precisión diagnóstica en cuanto al aumento en el uso de TC y RM. Individuos de edad media a avanzada parecieran ser más susceptibles a padecer esta patología, con un promedio de edad reportado entre 49 y 58 años^{3,4,6}. Nuestra muestra de población chilena presentó un promedio de edad mayor, con un amplio rango. Sin embargo, la etapa de la vida en la cual se observa la enfermedad se mantendría consistente.

Así como en nuestro estudio, en las distintas series de bola fúngica se observa un amplio predominio de sexo femenino. La diferencia en la prevalencia según sexo podría responder a una causa hormonal, lo que se concedería con la ausencia de bola fúngica en etapas prepuberales. Sin embargo, un estudio japonés propuso la causalidad en la mayor expectativa de vida de las mujeres, lo cual

se correlacionaría con mayor proporción de bola fúngica dada su frecuencia en edad avanzada⁶.

Los síntomas de presentación son de carácter inespecífico, siendo dolor facial el más frecuente en nuestra serie de casos, observado en 40% de ellos. Otros síntomas habituales fueron descarga nasal, cefalea y obstrucción nasal. Ante esto, el estudio imagenológico toma relevancia para la sospecha diagnóstica. Es importante destacar que es posible que los pacientes se mantengan asintomáticos durante la enfermedad, en cuyo caso fueron referidos por hallazgos en una TC realizada por otra causa, correspondiendo a un diagnóstico imagenológico.

La bola fúngica se observa en la TC de CPN sin contraste como una imagen hiperdensa que ocupa un seno paranasal, con o sin áreas puntiformes de alta densidad que corresponden a calcificaciones. La mucosa inflamatoria circundante se vería hipodensa. Si bien puede existir presencia de esclerosis y engrosamiento de las paredes sinusales afectadas, también es posible observar adelgazamiento de las mismas asociadas a áreas de erosión por la necrosis que genera la presión de la bola fúngica⁸. En nuestra serie de casos, las imágenes más frecuentes en la TC incluyen calcificaciones y esclerosis de la pared del seno comprometido (Figura 1).

En menor proporción, se observó erosión ósea de la pared del seno afectado. Un estudio que compara las características imagenológicas observadas en pacientes con bola fúngica y pacientes con rinosinusitis crónica, concluye que solo la presencia de calcificaciones y la erosión de la pared serían predictivas de bola fúngica con especificidad mayor a 93%⁹.

En la RM la mucosa inflamatoria se puede observar hiperintensa en T2, mientras la bola fúngica es hipointensa en T1 y T2 dada la ausencia de agua libre. Así mismo, el contenido sinusal no realiza con el uso de contraste. En las imágenes de T2 se pueden observar zonas de ausencia de señal dada por la presencia de calcificaciones⁸. En nuestro centro se utilizó como estudio adicional en casos de duda diagnóstica o hallazgos de agresión local en la TC.

En concordancia a estudios anteriores^{3,4,6}, el cultivo de secreción resultó positivo en solo 25% de los pacientes. En contraste, el estudio histológico de la muestra tuvo un rendimiento de 100%, mostrando presencia de *hyalohyphomycetes* en

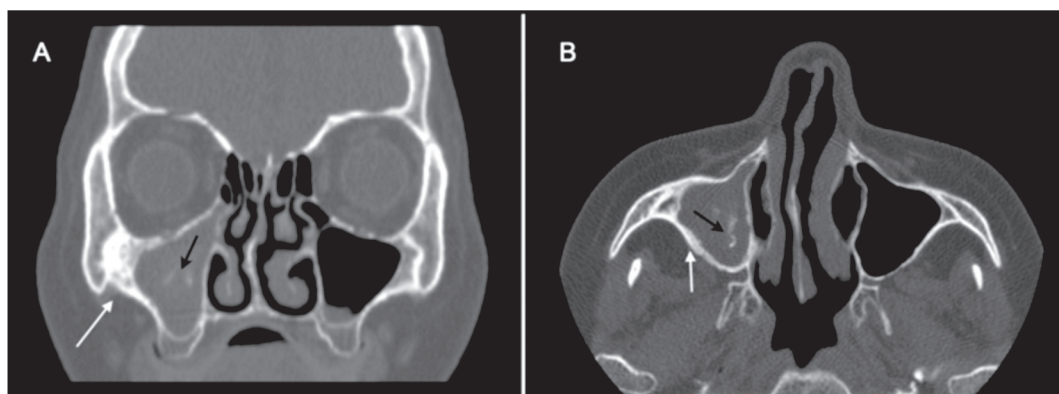


Figura 1. Tomografía computarizada de cavidades paranasales (A) Corte coronal; (B) Corte axial. Se observa opacidad de seno maxilar derecho con imagen de calcificaciones en su interior (flecha negra). Observe además la esclerosis de las paredes del seno maxilar (flecha blanca).

todos los casos estudiados. Esto se debe a que las hifas contenidas en la bola fúngica no son viables al cultivo, razón por la cual en algunos centros este tipo de estudio ya no es solicitado en pacientes con sospecha de esta patología¹⁰.

El tratamiento de la bola fúngica se basa en la remoción del conglomerado de hongos y la obtención de un adecuado drenaje del seno afectado. En todos nuestros pacientes el manejo fue de resorte quirúrgico por medio de CEN, técnica mínimamente invasiva con altas tasas de éxito y excelentes resultados a corto y largo plazo¹¹. Si bien la CEN ha sido el procedimiento de elección desde su introducción, el abordaje combinado con técnica de Caldwell-Luc sigue siendo una opción terapéutica en la actualidad, con baja morbilidad asociada¹². Este último permite acceso directo al seno maxilar a través de la fosa canina para el completo drenaje de su contenido, procedimiento que fue necesario solo en el 15% de los pacientes de nuestra serie. Hoy en día existen otras alternativas al abordaje del Caldwell-Luc en aquellos casos en que no es posible limpiar completamente el seno maxilar a través de una antrostomía maxilar, como por ejemplo la megaantrostomía, trefinación

de fosa canina, el abordaje transeptal o el abordaje prelagrimal¹³.

En cuanto al pronóstico de la enfermedad, distintas series han demostrado una baja recurrencia (0% a 3,2%)^{3,4,6}. Si bien en nuestro estudio no se observaron recurrencias, debemos considerar que el tiempo de seguimiento no supera los 3 años. Series anteriores han mostrado recurrencias a partir de los 6 años de seguimiento, por lo que es necesario evaluar esta característica más adelante.

CONCLUSIÓN

La bola fúngica tiene presentación clínica inespecífica, siendo asintomática en un porcentaje importante de pacientes. Se debe sospechar en presencia de compromiso sinusal unilateral asociado a calcificaciones o esclerosis en el TC de CPN. La RM se solicita solo en casos seleccionados. El diagnóstico de la bola fúngica se confirma mediante estudio histopatológico, dado el bajo rendimiento de los cultivos. La CEN comprende el abordaje de elección para toma de muestra y tratamiento de esta patología, resultando en una baja tasa de recidiva local.

BIBLIOGRAFÍA

1. CHAKRABARTI A, DENNING D, FERGUSON B, Y COL. Fungal Rhinosinusitis: A Categorization

and Definitional Schema Addressing Current Controversies. *Laryngoscope* 2009; 119: 1809-18.

2. DeSHAZO RD, O'BRIEN M, CHAPIN K, Y COL. Criteria

- for the diagnosis of sinus mycetoma. *J Allergy Clin Immunol* 1997; 99: 475-85.
3. NICOLAI P, LOMBARDI D, TOMENZOLI D, Y COL. Fungus ball of the paranasal sinuses: Experience in 160 patients treated with endoscopic surgery. *Laryngoscope* 2009; 119: 2275-9.
 4. DUFOUR X, KAUFFMANN-LACROIX C, FERRIE JC, GOUJON JM, RODIER MH, KLOSSEK JM. Paranasal sinus fungus ball: epidemiology, clinical features and diagnosis. A retrospective analysis of 173 cases from a single medical center in France, 1989-2002. *Med Mycol* 2006; 44: 61-7.
 5. DUFOUR X, KAUFFMANN-LACROIX C, FERRIE JC, Y COL. Paranasal sinus fungus ball and surgery: A review of 175 cases. *Rhinology* 2005; 43: 34-9.
 6. NOMURA K, ASAKA D, NAKAYAMA T, Y COL. Sinus fungus ball in the Japanese population: clinical and imaging characteristics of 104 cases. *Int J Otolaryngol* 2013; 2013:731640. ¿????
 7. MENSİ M, PICCIONI M, MARSILI F, NICOLAI P, SAPELLI PL, LATRONICO N. Risk of maxillary fungus ball in patients with endodontic treatment on maxillary teeth: a case-control study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007; 103: 433-6.
 8. ARIBANDI M, MCCOY V, BAZAN C. Imaging Features of Invasive and Noninvasive Fungal Sinusitis: A Review. *Radiographics* 2007; 27: 1283-96.
 9. CHEN J, HO C. The significance of computed tomographic findings in the diagnosis of fungus ball in the paranasal sinuses. *Am J Rhinol Allergy* 2012; 26: 117-9.
 10. LOP J, GRAS J, BOTHE C, MONTSERRAT J, SUMARROCA A, MASSEGUR H. Bola fúngica sinusal: análisis de nuestra casuística. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2016; 67: 220-5.
 11. LAI JC, LEE HS, CHEN MK, TSAI YL. Patient satisfaction and treatment outcome of fungus ball rhinosinusitis treated by functional endoscopic sinus surgery. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2011; 268: 227-30.
 12. COSTA F, POLINI F, ZERMAN N, ROBIONY M, TORO C, POLITI M. Surgical treatment of Aspergillus mycetomas of the maxillary sinus: review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007; 103: 23-9.
 13. WORMALD P. Endoscopic Sinus Surgery: Anatomy, Three-dimensional Reconstruction, and Surgical Technique. 3rd ed. New York: Thieme Medical Publishers Incorporated; 2013. p.200-223.