

ORIGINAL BREVE

Hiposmia, rinorrea fétida y algias faciales por aspergiloma maxilar

A. Vivanco Allende^a, A. Coca Pelaz^{b,*}, B. Vivanco Allende^c y J.L. Llorente Pendás^b

^aServicio de Pediatría del Hospital Universitario Central de Asturias, Asturias, España

^bServicio ORL del Hospital Universitario Central de Asturias, Asturias, España

^cServicio de Anatomía Patológica del Hospital Universitario Central de Asturias, Asturias, España

Recibido el 23 de febrero de 2010; aceptado el 13 de abril de 2010

Disponible en Internet el 26 de mayo de 2010

PALABRAS CLAVE

Sinusitis fúngica;
Micotoma;
Cirugía endoscópica;
Aspergillus

KEYWORDS

Fungal sinusitis;
Mycetoma;
Endoscopic surgery;
Aspergillus

Resumen

En los últimos años se ha observado un aumento de la incidencia de sinusitis fúngicas en sujetos inmunocompetentes. Presentamos un caso de sinusitis micótica en una paciente de 12 años, en el que concurren varios aspectos que podían dificultar su diagnóstico, produciendo un retraso en su tratamiento definitivo. Este caso ilustra cómo, para llegar a un diagnóstico correcto de esta patología, es necesario basarse en los estudios histológicos y radiológicos, pero siempre sin olvidar un aspecto clave como es la sospecha diagnóstica. El tratamiento de la sinusitis fúngica es quirúrgico, y en el momento actual la técnica de elección es la cirugía endoscópica nasal. Se exponen las características clínicas de esta patología y los métodos diagnósticos necesarios.

© 2010 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Hyposmia, fetid rhinorrhea and facial pain caused by a maxillary aspergilloma

Abstract

In the last few years an increase has been observed in the incidence of fungal sinusitis in immunocompetent subjects. We present a case of mycotic sinusitis in a 12-year-old patient, in which there were several aspects that could have made the diagnosis more difficult, thus delaying her definitive treatment. This case illustrates how to arrive at a correct diagnosis of this pathology. It must be based on the histological and radiological studies, but always without forgetting a key aspect as it is a suspected diagnosis. The treatment of fungal sinusitis is surgical, and currently, endoscopic sinus surgery is the choice. We describe the clinical characteristics of this pathology and the diagnostic methods required.

© 2010 Asociación Española de Pediatría. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: acocapelaz@yahoo.es (A. Coca Pelaz).

Introducción

Los aspergilomas maxilares pediátricos son una patología poco frecuente, cuyo diagnóstico se basa en la sospecha clínica y en los estudios histológicos y radiológicos. La incidencia de sinusitis fúngicas en sujetos inmunocompetentes ha aumentado en los últimos años¹, su evolución suele ser benigna aunque puede ser agresiva dependiendo de la duración, localización y estado inmunológico del paciente². Su tratamiento es quirúrgico, debiendo ser completado con tratamiento médico para su completa resolución³. Hay diversos tipos de sinusitis fúngicas dependiendo del estado inmunitario del huésped, siendo las formas invasoras en la actualidad las que se asocian a estados de inmunodeficiencia (trasplantes, SIDA, leucemias...) y las formas no invasivas, las que aparecen en sujetos inmunocompetentes.

Presentamos el caso de una paciente de 12 años que consultó por sinusitis crónica con rinorrea purulenta, hiposmia e intensas algas faciales, debido todo ello a un aspergiloma maxilar, que requirió tratamiento quirúrgico para su resolución.

Caso clínico

Niña de 12 años que consulta por insuficiencia respiratoria nasal izquierda de larga evolución, con rinorrea purulenta y fétida, que no había mejorado a pesar de haber realizado correctamente distintos tratamientos antibióticos y anti-inflamatorios. En los últimos meses relata dificultad para percibir los olores e intensas algas hemifaciales izquierdas que empeoraban con los cambios posturales, sin mejoría a pesar de tratamiento analgésico. Aunque no presentaba clínica alérgica asociada se realizaron pruebas cutáneas con resultado negativo.

A la exploración presentaba dolor a la palpación sinusal maxilar y etmoidal izquierda, sin eritema de la piel, con movilidad ocular y agudeza visual normales. Se solicitó valoración al servicio de ORL que realizó una endoscopia nasal en la que se objetivó drenaje purulento espeso abundante por ostium maxilar izquierdo. Dado lo prolongado de la clínica con la exacerbación actual, los hallazgos exploratorios y la falta de respuesta a los tratamientos pautados, se solicita una TC de fosas y senos paranasales, en la que se observa una pansinusitis izquierda con ocupación completa del seno maxilar, complejo osteomeatal, celdillas etmoidales, seno frontal y esfenoidal izquierdos, con ocupación completa también del meato medio y superior izquierdos (fig. 1). Dentro del seno maxilar izquierdo se apreciaban imágenes de distintas radiodensidades (fig. 2).

Ante la sospecha de una sinusitis fúngica maxilar se programa a la paciente para cirugía. Se realizó una cirugía endoscópica nasosinusal (CENS) eliminando gran cantidad de material purulento espeso de aspecto fúngico. Se remiten muestras a anatomía patológica de mucosa y se toman muestras de la secreción purulenta para cultivo de bacterias y hongos. Se taponan la fosa nasal durante 24h, tras las cuales se retira el taponamiento y la paciente es dada de alta con tratamiento corticoideo tópico nasal (mometasona furoato 2 aplicaciones/fosa cada 24h, durante un período de 2 meses) y antibiótico oral (cefditoren



Figura 1 Corte coronal de TC en el que se observa la pansinusitis izquierda con obstrucción del complejo osteomeatal.

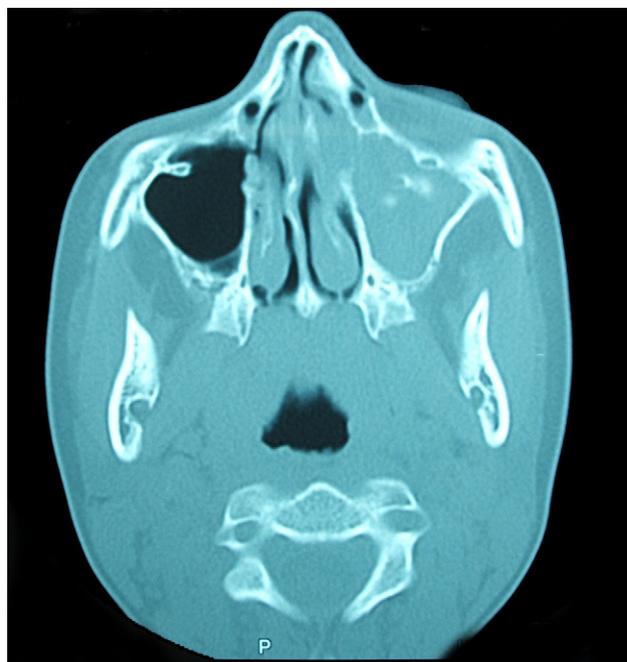


Figura 2 Corte axial de TC en el que se observa la ocupación completa del seno maxilar izquierdo por una masa que contiene distintas radiodensidades.

400 mg/12 h durante 2 semanas), para evitar sobreinfecciones rinosinuales tras la manipulación quirúrgica dada la alteración que esta suele producir en el transporte mucociliar.

El resultado de la anatomía patológica mostró fragmentos de epitelio respiratorio reactivo con denso infiltrado inflamatorio crónico en estroma subyacente y masas de estructuras fúngicas en relación e independientes de la

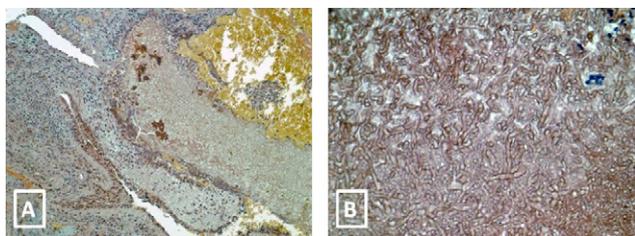


Figura 3 Composición de imágenes de la anatomía patológica: A) Fragmento de mucosa del seno maxilar en el que se observa el epitelio respiratorio junto a la masa de *Aspergillus* (tinción hematoxilina-eosina. Magnificación 10 ×). B) Detalle de las hifas de *Aspergillus* (Magnificación 40 ×).

mucosa respiratoria. Los elementos fúngicos se componen de hifas septadas de 3–6 μm con ramificaciones en ángulo de 45° en disposición paralela, con ocasionales conidios (fig. 3). Todo ello confirma el diagnóstico de aspergiloma maxilar.

En el cultivo no se obtuvo crecimiento de hongos, aunque se aisló *Streptococcus intermedius*.

Quince meses tras la cirugía la paciente se encuentra asintomática.

Discusión

Los hongos son microorganismos eucariotas, que pueden causar enfermedad por infección, al elaborar toxinas o producir reacciones alérgicas. Las rinosinusitis se producen por inhalación de esporas y, a veces, a partir de una infección pulmonar⁴. El cultivo de la muestra obtenida permite la identificación del hongo, aunque el diagnóstico definitivo se establece mediante el estudio anatomopatológico, ya que es el método más rápido y además permite valorar la infiltración en profundidad. El cultivo para hongos es negativo en más de la mitad de los casos⁵, lo cual debe tenerse en cuenta al valorar sus resultados, sobre todo si se realiza la toma de la muestra en la consulta, ya que ante un cultivo negativo para hongos podemos diagnosticar al paciente de sinusitis bacteriana, demorando el diagnóstico real y su tratamiento definitivo quirúrgico. Por lo tanto conviene analizar sus resultados junto con la clínica, la exploración y cuando dispongamos de ella, de la anatomía patológica, a fin de hacer un diagnóstico correcto. En nuestro caso el cultivo fue negativo para hongos, pero positivo para bacterias (por sobreinfección) lo cual podía habernos llevado a un diagnóstico erróneo, aunque el examen histológico confirmó la sospecha diagnóstica.

Las sinusitis fúngicas se pueden dividir en 4 formas principales: sinusitis fúngica alérgica, aguda fulminante, crónica invasiva, y crónica no invasiva. Nuestro caso, de acuerdo con esta clasificación, quedaría englobado dentro de las sinusitis fúngicas crónicas no invasivas (bola fúngica), también denominada en ocasiones micetoma, aunque este término no resulta muy adecuado ya que hace referencia a una infección subcutánea, granulomatosa, fistulizada y con secreción⁶. Este tipo de rinosinusitis afecta a pacientes inmunocompetentes, no atópicos (lo que la diferencia de la sinusitis fúngica alérgica)⁷ y su clínica se caracteriza por

obstrucción nasal, rinorrea mucopurulenta, sensación de plenitud facial y dolor facial. El seno más frecuentemente afectado es el maxilar, aunque se puede presentar en el seno frontal o esfenoidal, y existe tendencia a la unilateralidad^{1,8}. Se trata de un conjunto de hifas micóticas entrelazadas densamente que no invaden la mucosa sobre la que asientan, por lo tanto son infecciones extramucosas, aunque se pueden producir erosiones óseas por la presión ejercida por la masa. Suele comenzar como una infección dentaria o ser secundaria a una fístula oroantral⁹.

En nuestro medio el hongo más frecuentemente implicado es el *Aspergillus fumigatus*, que presenta una distribución universal. Está presente en el suelo, aire, agua, alimentos, plantas y materia orgánica en descomposición. En las casas, se encuentra en el polvo y los alimentos. Su desarrollo se ve favorecido por la humedad y las temperaturas elevadas.

La TC es la mejor prueba de imagen ya que permite observar la opacificación total o subtotal del seno afectado, en ocasiones con imágenes de esclerosis ósea de las paredes sinusales, objetivándose en el interior del seno diferentes radiodensidades, que corresponden a microcalcificaciones o hifas densas. Se debe recurrir a la RM si existe sospecha de invasión craneal o intraorbitaria¹⁰.

El tratamiento consiste en la extirpación quirúrgica, siendo las técnicas endonasales de cirugía endoscópica las de primera elección. No requiere de tratamiento antifúngico sistémico¹¹, ya que al tratarse de una infección extramucosa el antifúngico no alcanza la zona afectada, puesto que no se ha demostrado su excreción junto con el moco sinusal. Esta patología destaca a su vez por su baja tasa de recidivas¹².

En la actualidad se intenta conseguir, aunque de momento con un éxito anecdótico, una efectividad variable e importantes efectos secundarios, la administración de distintos antifúngicos (ketoconazol, Anfotericina B...) de forma tópica, para su uso en esta patología y en la sinusitis fúngica alérgica¹³.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. De Carpentier JP, Ramamurthy L, Denning DW, Taylor PH. An algorithmic approach to aspergillus sinusitis. *J Laryngol Otol.* 1994;108:314–8.
2. Leo G, Incorvaia C. The clinical spectrum of rhinosinusitis in children. *Int J Immunopathol Pharmacol.* 2010;23:24–8.
3. Leo G, Mori F, Incorvaia C, Barni S, Novembre E. Diagnosis and management of acute rhinosinusitis in children. *Curr Allergy Asthma Rep.* 2009;9:232–7.
4. Plaza G, Toledano A, Plaza A, Oliete S, Noriega J, Galindo N. Sinusitis fúngicas no invasivas: sinusitis fúngica alérgica y micetomas sinusales. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2000;51:603–12.
5. Mitchell TG. Overview of basic medical mycology. *Otolaryngol Clin North Am.* 2000;33:237–49.
6. Schell WA. Histopathology of fungal rhinosinusitis. *Otolaryngol Clin North Am.* 2000;33:251–76.
7. Bent JP, Kuhn FA. Diagnosis of allergic fungal sinusitis. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1994;104:1074–9.

8. Gómez Lloréns T, Palomar V, Ruiz Giner Egidio A, Latorre J, Romeu C. Fungal sinusitis. Report of four cases. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 1998;49:241–4.
9. Dahniya MH, Makkar R, Grexa E, Cherian J, al-Marzouk N, Mattar M, et al. Appearances of paranasal fungal sinusitis on computed tomography. *Br J Radiol.* 1998;71:340–4.
10. Lund VJ, Lloyd G, Savy L, Howard D. Fungal rhinosinusitis. *J Laryngol Otol.* 2002;114:76–80.
11. Malani PN, Kauffman CA. Invasive and allergic fungal sinusitis. *Curr Infect Dis Rep.* 2002;4:225–32.
12. Alobid I, Bernal M, Menéndez LM, Alos L, Benitez P, Cardesa A, et al. Cirugía endoscópica nasosinusal en la sinusitis fúngica. Nuestra experiencia. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2002;53:393–7.
13. Bent JP, Kuhn FA. Antifungal activity against allergic fungal sinusitis organism. *Laryngoscope.* 1996;106:1331–4.