

¿Cuál es su diagnóstico?

What should the diagnosis be?

Mujer de 35 años sin antecedentes patológicos de interés, que solicita tratamiento con implantes osteointegrados (OI) en tercer cuadrante.

Al realizar una ortopantomografía (OPM) se observa como hallazgo casual una imagen de densidad metálica a nivel de seno maxilar derecho (Fig. 1). La paciente está clínicamente asintomática. Se decide estudio mediante tomografía computerizada, que objetiva nuevamente la presencia de una imagen de densidad metálica en seno maxilar derecho, acompañado de engrosamiento de la mucosa sinusal, sin otros hallazgos destacables (Fig. 2).

Se realiza endoscopia nasal (Fig. 3) en la que se observa poliposis, y un moco intrasinusal muy viscoso, de difícil evacuación, del que se toman muestras para estudio anatomo-patológico y microbiológico (Fig. 4).

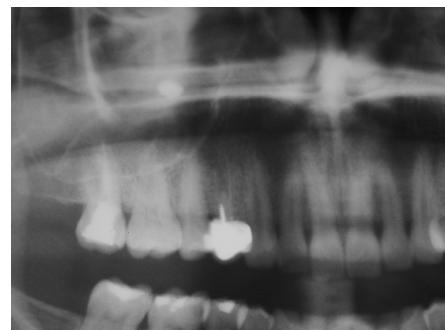


Figura 1. Ortopantomografía que muestra imagen radiopaca en maxilar superior derecho.
Figure 1. Orthopantomography showing radiopacity in right maxilla.

Female, 35 years old with no previous pathological background of interest, requested treatment with osseointegrated implants (OI) in the third quadrant.

On carrying out the orthopantomography (OPG) an image with a metallic density was observed by chance in the right maxillary sinus (Fig. 1). The patient was clinically asymptomatic. The computerized tomography examination once again showed the presence of a metal-dense image in the right maxillary sinus, together with thickening of the mucosa in the sinus. There were no other findings of note (Fig. 2).

Nasal endoscopy was carried out (Fig. 3) which showed polyposis and very viscous mucus in the sinus that was difficult to drain. Samples were taken for pathologic and microbiological studies (Fig. 4).

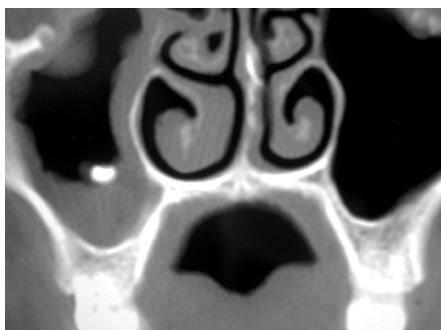


Figura 2. Tomografía computerizada que muestra la localización intrasinusal de una estructura de densidad metálica, con engrosamiento de la mucosa sinusal.

Figure 2. Computed tomography showing a structure with a metal density in a sinus and a thickening of sinus mucosa.



Figura 3. Visión endoscópica del seno maxilar afecto.

Figure 3. Endoscopic view of the affected maxillary sinus.

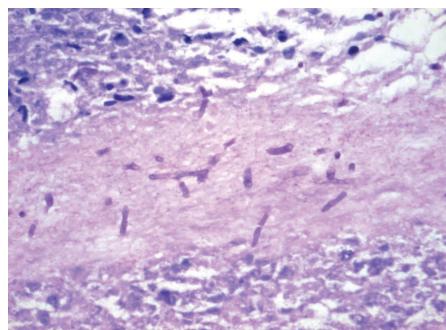


Figura 4. Imagen histológica de la muestra donde se observa la presencia de hifas dispersas.

Figure 4. Histologic appearance of the sample showing scattered hyphae.

Aspergillosis simulando cuerpo extraño intrasinusal

Sinus aspergillosis with a foreign body appearance

A. Pradillos Garcés¹, J. Gonzalez Lagunas¹, X. Martínez Fuster¹, J. Mareque Bueno¹, G. Raspall Martín¹, H. Umbert Massegur²

Discusión

Ante el hallazgo casual de una imagen sugestiva de cuerpo extraño de densidad metálica a nivel del seno maxilar se debe plantear el siguiente diagnóstico diferencial: a) existencia de restos radiculares intrasinusales, b) presencia de cuerpos extraños intrasinusales por otros mecanismos (p.ej. perdigones), c) tatuajes de amalgama, d) calcificaciones sinusales inespecíficas y e) sinusitis fungica alérgica (SFA).

En este caso se pueden descartar de entrada algunos de estos diagnósticos: en las dos primeras situaciones (a y b) existiría una manipulación dentaria del maxilar o un antecedente traumático previo que no se halla en la historia clínica. En una implantación traumática de amalgama (c) se encontraría como antecedente un tratamiento odontológico compatible con el diagnóstico, además de la evidencia de un tatuaje visible en la mucosa oral;¹ en este caso no existe manipulación previa con amalgama y la exploración de la mucosa es normal. Podría tratarse de un osteoma intrasinusal (d), aunque es una patología que se da mucho más frecuentemente a nivel de senos frontales, siendo raro en el seno maxilar, por lo que de entrada tampoco se va a tener en consideración. En este caso, el estudio histológico del moco obtenido por endoscopia mostró abundantes eosinófilos, cristales de Charcot-Leyden e hifas fúngicas dispersas (Fig. 4), lo que orientó el caso como una infección fúngica sin invasión mucosa ni ósea sugeritiva de sinusitis fungica alérgica (e).

Ante la orientación diagnóstica, se procedió al drenaje endoscópico de la mucosa impactada y aireación del seno afectado. Se completó el tratamiento con la administración de corticoides sis-

Discussion

Following the chance discovery of an image in a maxillary sinus with a metallic density that is suggestive of a foreign body, the following differential diagnosis should be considered; a) the existence of remains of a root in the sinus, b) presence foreign bodies in the sinus from a different source (e.g. pellet), c) amalgam tattoos, d) non-specific calcifications in the sinus and e) allergic fungal sinusitis (AFS).

In this case some of these diagnoses can be ruled out from the start: in the first two situations (a and b) there would be evidence of the maxilla having been manipulated dentally, or of previous trauma not included in the patient's medical history. In the event of the implantation of amalgam because of trauma (c) there would be previous dental treatment compatible with the diagnosis, in addition to a tattoo visible on the oral mucosa.¹ In this case there was no previous use of amalgam and the examination of the oral mucosa proved normal. An intra-sinusal osteoma could be possible (d), although it is a pathology that is more usually observed in the frontal sinuses, and it is rarely found in the maxillary sinuses, so from the beginning this need not be taken into consideration. In this case, the histological study of the mucus obtained by endoscopy showed an abundance of eosinophils, Charcot-Leyden crystals and scattered fungal hyphae (Fig. 4). This directed the case towards a fungal infection with no mucosal or osseous invasion, and it was suggestive of allergic fungal sinusitis (e).

In view of this diagnostic orientation, endoscopic drainage was carried out of the mucosal blockage and the affected sinus was aerated. The treatment was completed with the administration of systemic corticoids, as the complete elimination of hyphae and spores is unlikely even with the best surgery.

Allergic Fungal Sinusitis (AFS) is a non-invasive fungal disease that has traditionally been linked with an IgE-mediated hypersensitivity reaction to fungal antigens in young

1 Servicio de Cirugía Oral Maxilofacial
Hospital Vall d'Hebron, Barcelona, España
2 Servicio de ORL Clínica Girona, Girona, España

Correspondencia:
Alba Pradillos Garcés
Servicio de Cirugía Maxilofacial Hospital Vall d'Hebron
P Vall d'Hebron 129
08035 Barcelona
Email: 38640apg@comb.es

témicos, debido a que incluso con la mejor cirugía es poco probable poder eliminar por completo hifas y esporas.

La sinusitis fúngica alérgica (SFA) es una enfermedad fúngica no invasiva relacionada clásicamente con una reacción de hipersensibilidad a antígenos fúngicos mediada por IgE en el adulto joven, inmunocompetente, afecto de rinitis o sinusitis crónica y/o poliposis nasal recurrentes a pesar de tratamiento médico y/o quirúrgico.² No existe predominio de sexo. En ocasiones el proceso puede llegar a ser invasivo,³ pudiendo incluso erosionar el hueso.

Fue descrita inicialmente hace más de una década por Millar y Lamb,^{4,5} y se denominó "Aspergilosis Sinusal Alérgica" por su similitud histopatológica con la "Aspergilosis Broncopulmonar Alérgica" (ABPA). Estudios posteriores han demostrado que la mayoría de casos con esta entidad clínica eran causados por especies distintas a Aspergillus, por lo que actualmente a esta entidad se le denomina "Sinusitis Fúngica Alérgica".

La sospecha diagnóstica se plantea ante el fracaso repetido del tratamiento antibiótico adecuado en una sinusitis crónica y, menos frecuentemente, ante el hallazgo radiológico de una imagen metálica intrasinusal simulando un cuerpo extraño,⁶ (necesitando igualmente ante esta eventualidad un alto grado de sospecha clínica). Existen algunos factores predisponentes que pueden orientar en el diagnóstico como son un huésped atópico, la carga ambiental del hongo o determinadas condiciones anatómicas locales como una poliposis masiva, desviación septal u obstrucción del complejo osteomeatal.

En procesos de larga evolución puede incluso haber exoftalmos, diplopia e invasión intracraneal (especialmente en niños).

En el estudio radiológico se encuentran imágenes puntiformes radioopacas, de densidad metálica, en la radiografía simple y en la tomografía computarizada (TC). En la TC se identifican masas densas heterogéneas en el interior de los senos paranasales, con o sin afectación ósea. Al valorarlas en una resonancia magnética (RM), estas masas mucinosas se identifican como isointensas en T1 e hipointensas en T2.

Ante un cuadro clínico de estas características debe realizarse una endoscopia nasal como proceso diagnóstico y terapéutico. El hallazgo habitual es un estasis de unas secreciones de gran densidad que obstruyen el drenaje sinusal y que se acompañan de edema e inflamación de la mucosa.

En 1994, Bent y Kuhn describieron cinco criterios diagnósticos que en la actualidad siguen siendo los de mayor aceptación, y que incluyen: 1) hipersensibilidad tipo I confirmada por la historia clínica, pruebas cutáneas o serológicas, 2) existencia de poliposis nasal, 3) imagen característica de material hiperdenso en la TC, 4) evidencia histológica de mucina eosinofílica sin invasión fúngica de los tejidos sinusales, y 5) tinción o cultivos positivos para hongos en el material obtenido por cirugía del contenido sinusal (no siendo el cultivo imprescindible para el diagnóstico).⁷ Sin embargo, existen algunos estudios que afirman que el papel de las IgE en la etiología o patogenia de la SFA no está demostrado, y que su diagnóstico no debería incluir la hipersensibilidad de tipo I.²

El diagnóstico definitivo es, por lo tanto, histológico:⁶ encontrando una formación de mucina alérgica que contiene eosinófilos, cristales de Charcot-Leyden (producto de la degradación de los eosinófilos) e hifas fúngicas dispersas; se trata de una masa rica en agua, pro-

adults that are immunocompetent, and that suffer from rhinitis or chronic sinusitis and/or recurrent nasal polyposis in spite of medical and/or surgical treatment.² There is no sex predominance. On occasions the process can become invasive,³ and bone can even be eroded.

It was first described more than a decade ago by Millar and Lamb^{4,5} and it was called "Allergic aspergillosis of the sinuses" due to the similarity with "Allergic bronchopulmonary aspergillosis" (ABPA). Subsequent studies showed that most cases with this clinical entity were caused by species that were different to Aspergillus and, as a result, it became known as "Allergic Fungal Sinusitis".

The suspected diagnosis is made when adequate antibiotic treatment for chronic sinusitis repeatedly fails, and less frequently, when there is a radiologic finding of a metallic image in the sinuses that appears to be a foreign body⁶ (in this event high clinical suspicion is required). There are certain predisposing factors that serve as a guide to diagnosis, such as an atopic host, environmental burden of the fungus, or certain local anatomic conditions such as massive polyposis, septal deviation or obstruction of the osteomeatal complex.

If the condition has been progressing for a long time there may even be exophthalmos, diplopia and intracranial invasion (especially in children).

The radiological study will show dotted radiopaque images with a metallic density in plain x-rays and in computed tomography (CAT scan). The CAT scan will show dense heterogeneous masses within the paranasal sinuses, which may or may not affect the bone. When evaluated by magnetic resonance (MR), these tiny masses can be identified as isointense on T1 and hypointense on T2 weighted images.

When confronted by a clinical picture of these characteristics, a nasal endoscopy should be carried out as a diagnostic and therapeutic procedure. The usual findings are of considerable stasis of secretions preventing sinus drainage together with edema and mucosal inflammation.

In 1994 Bent and Kuhn described five diagnostic criteria that are currently the most widely accepted. These include: 1) Type I hypersensitivity confirmed by the patient's medical history, skin or serological testing, 2) existence of nasal polyposis, 3) characteristic image of hyperdense material on CAT scan, 4) histological evidence of eosinophilic mucin with no fungal invasion into sinus tissue, and 5) positive fungal staining or culture in the material obtained by surgery of the contents of the sinus (the culture is not essential for the diagnosis).⁷ However, there are some studies that claim that the role of IgE in the etiology or pathogeny of AFS has not been demonstrated, and that its diagnosis should not be included in Type I hypersensitivity.²

The definitive diagnosis is therefore histological⁶ given the appearance of a formation of allergic mucin that contains eosinophils, Charcot-Leyden crystals (a breakdown product of the eosinophils) and scattered fungal hyphae. It is a mass that is rich in water, proteins and lipids. It has a

teínas y lípidos, con una cantidad de calcio variable, y con un alto contenido en metales como el Zn, Pb, Cu, Ag y Fe;⁸ éstos últimos podrían ser los responsables de las típicas imágenes radiológicas descritas previamente. Se han identificado múltiples especies fúngicas como factores etiológicos responsables de la inflamación inicial: Curvularia, Bipolaris, Alternaria, Exserohilum, y finalmente Aspergillus, representando algunos de los casos de SFA, pero no la mayoría.

El tratamiento de elección de la SFA consiste en la cirugía endoscópica sinusal^{9,10} con drenaje de la mucosa impactada y aireación de los senos afectados, mediante una antrostomía a nivel del meato medio y/o fosa canina.¹¹ Se debe considerar que aún con la mejor técnica quirúrgica es poco probable conseguir la total eliminación de hifas y esporas, por lo que se recomienda completar el tratamiento con la administración de corticoides sistémicos, y posteriormente un seguimiento endoscópico para evaluar posibles recurrencias, que son la norma en ausencia de una terapia adyuvante a la cirugía. No existe ninguna razón por la que esté indicado el empleo de antifúngicos tóxicos como la Anfotericina B para tratar sinusitis fúngicas no invasivas, y tampoco existe evidencia de la eficacia de otros fármacos como el Itraconazol o el Fluconazol.

El pronóstico a corto plazo es bueno, pero paciente y médico deben comprender que, con los tratamientos actuales, se trata de una enfermedad crónica.

Bibliografía

1. Buchner A. Amalgam tattoo (amalgam pigmentation) of the oral mucosa: clinical manifestations, diagnosis and treatment. *Refuat Hapeh Vehashinayim* 2004;21:19-22, 96.
2. Corradini C, Del Ninno M, Schiavino D, Patriarca G, Paludetti G. Allergic fungal sinusitis. A naso-sinusal specific hyperreactivity for an infectious disease? *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2003;23:168-74.
3. De Foer C, Fossion E, Vaillant JM. Sinus aspergillosis. *J Craniomaxillofac Surg* 1990;18:33-40.
4. Millar J, Lamb D. Allergic bronchopulmonary aspergillosis of the maxillary sinuses. *Thorax* 1981;36:710.
5. Lamb D, Millar J, Johnston A. Allergic aspergillosis of the paranasal sinuses. *J Pathol* 1982;137:56.
6. Guillen Guerrero VS, Aguirre Garcia F, Munoz Herrera A, Santacruz Ruiz S, Blanco Perez P, Perez Lledo C, Sancipriano Hernandez JA. Maxillary sinusitis caused by Aspergillus. *Otorrinolaringol Ibero Am* 2000;27:67-75.
7. Bent JP, Kuhn FA. Diagnosis of allergic fungal sinusitis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;111:580-8.
8. Braun JJ, Bourjat P, Gentine A, Koehl C, Veillon F, Conraux C. Caseous sinusitis. Clinical, x-ray computed, surgical, histopathological, biological, biochemical and myco-bacteriological aspects. Propos of 33 cases. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 1997;114:105-15.
9. Plaza G, Toledano A, Plaza A, Oliete S, Noriega J, Galindo N. Non-invasive fungal sinusitis: allergic fungal sinusitis and sinusal mycetomas. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2000;5:603-12.
10. Carrat X, Rebuffy M, Chabrol A. Non invasive naso-sinusal aspergillosis. Contribution of endonasal microsurgery. A propos of 16 cases. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord)* 1993;114:177-81.
11. Chobillon MA, Jankowski R. What are the advantages of the endoscopic canine fossa approach in treating maxillary sinus aspergillomas? *Rhinology* 2004;42:230-5.

variable quantity of calcium, and it has a high content of metal's such as zinc, lead, silver, copper, iron;⁸ the latter could be responsible for the typical radiological images described previously. Multiple fungal species have been identified as etiological factors responsible for the initial inflammation: Curvularia, Bipolaris, Alternaria, Exserohilum, and finally Aspergillus, representing some of the AFS cases, but not the majority.

The treatment of choice for AFS consists in sinusal endoscopic surgery^{9,10} with drainage of compressed mucus and aeration of the affected sinuses by means of an antrostomy by the middle meatus and/or canine fossa.¹¹ It should be kept in mind that even with the best surgical technique, the elimination of all hyphae and spores is unlikely. It is recommended that the treatment be completed with the administration of systemic corticoids and that an endoscopy be included in the subsequent follow-up in order to evaluate possible recurrences, which would be the norm in the absence of adjuvant therapy after the surgery. There is no reason for using toxic anti-fungal therapies such as Amphotericin B for treating non-invasive fungal sinusitis, nor is there evidence of the efficiency of other drugs such as Itraconazole or Fluconazole.

The prognosis in the short term is good, but both the patient and doctor should understand that, given the current treatment, it is a chronic disease.