

Papiloma invertido nasossinusal – Casuística do serviço de ORL do Hospital de Braga

Inverted nasosinusal papilloma – Casuistry of otorhinolaryngology department of Braga's Hospital

Daniel Miranda • Miguel Breda • Diana Silva • Nuno Marçal • Sérgio Vilarinho • Luís Dias

RESUMO

Objectivos: Avaliar a casuística hospitalar relativamente aos papilomas invertidos nasossinusais operados.

Desenho do Estudo: retrospectivo.

Materiais e Métodos: analisados os processos clínicos dos doentes com diagnóstico histológico de papiloma invertido entre Janeiro de 1990 e Janeiro de 2014, tendo sido recolhidos dados demográficos, clínicos, imagiológicos e cirúrgicos relevantes.

Resultados: 24 casos operados, correspondendo a um total de 19 doentes. A taxa de recidiva nesta série foi de 26%, sendo o tempo de seguimento médio de 33 meses. Não foi observado nenhum caso de malignização.

Conclusões: O papiloma invertido (PI) é um dos tumores mais frequentes da região nasossinusal representando cerca de 0.5 a 4% dos tumores desta topografia. Surgem mais frequentemente em indivíduos do sexo masculino, geralmente na 5ª e 6ª décadas de vida. O tratamento de eleição é cirúrgico sendo a via de abordagem endoscópica cada vez mais aceite, não obstante a possibilidade de realização de uma abordagem externa.

Palavras-chave: Papiloma invertido nasossinusal, tumor nasossinusal.

Abstract

Objectives: Evaluate the case series regarding sinonasal inverted papilloma surgery.

Study Design: retrospective.

Materials and Methods: We analyzed the clinical records of patients with histological diagnosis of inverted papilloma between January 1990 and January 2014, relevant demographic, clinical, imaging and surgical data were collected.

Results: 24 cases operated, corresponding to 19 patients. The recurrence rate in this serie was 26 %, and the mean follow-up was 33 months. No cases of malignancy were observed.

Conclusions: Inverted papilloma (IP) is one of the most common tumors of the sinonasal region representing about 0.5 to 4% of tumors in this topography. Arise more frequently in male, usually in 5th and 6th decades of life. The treatment of choice is surgical with endoscopic approach being increasingly accepted, despite the possibility of performing an external approach.

Keywords: Inverted nasosinusal papilloma, nasosinusal tumour.

INTRODUÇÃO

O papiloma invertido (PI) é um dos tumores mais frequentes da região nasossinusal representando cerca de 0.5 a 4% dos tumores desta topografia¹. A designação desta entidade deve-se ao seu padrão de crescimento submucooso característico (Figura 1), tendo a mesma sofrido diversas modificações desde a primeira publicação em 1854, por Ward². Em 1991 a Organização Mundial de Saúde classificou os papilomas nasossinusais em três variantes histológicas: exofítico, cilíndrico ou de células oncocíticas e invertido ou tipo Schneideriano. Esta última variante é a mais frequente representando cerca de 70% de todos os papilomas nasossinusais³. De acordo com dados publicados a incidência do PI varia entre os 0.6 – 1.5 casos/100 000 habitantes por ano^{1,4}.

Os PI apresentam agressividade local, com potencial de malignização estimado entre 5 a 15%^{1,4}. O PI pode estar associado a diferentes graus de transformação histológica, nomeadamente, atipia, displasia, carcinoma in situ ou mesmo carcinoma espinocelular (CEC). Este pode desenvolver-se de um modo síncrono com o

Daniel Miranda
Interno de Formação Específica do Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga

Miguel Breda
Interno de Formação Específica do Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga

Diana Silva
Interna de Formação Específica do Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga

Nuno Marçal
Assistente Hospitalar do Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga

Sérgio Vilarinho
Assistente Hospitalar do Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga

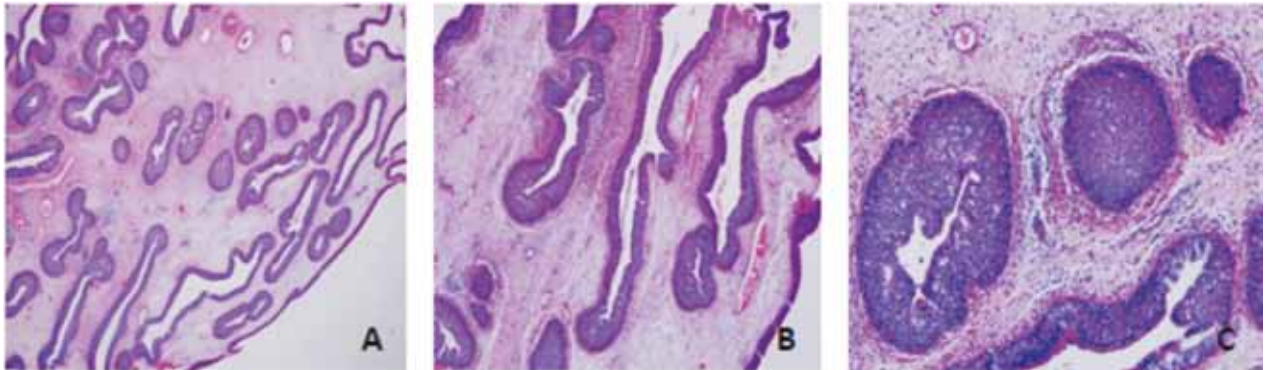
Luís Dias
Director do Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga

Correspondência:
Daniel Miranda
Serviço de Otorrinolaringologia – Hospital de Braga
Sete Fontes – S. Victor
4701-901 Braga
Telefone: 253 027 000 Fax: 253 027 999.
E-mail: alvesmiranda@gmail.com

Trabalho para apresentado no 61º Congresso Nacional da Sociedade Portuguesa de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial. Lisboa, 2014.

FIGURA 1

Exame histopatológico de um Papiloma Invertido (H&E) - A: 20X; B: 40X; C: 100X. Proliferação endofítica de epitélio do tipo respiratório em torno do estroma subjacente.



PI ou desenvolver-se após a ressecção deste (lesão metácrona)⁵. A ocorrência síncrona de CEC, de acordo com dados da literatura, varia entre 1.7% a 56%¹. O tratamento de eleição do PI é cirúrgico. No que respeita às técnicas cirúrgicas utilizadas, as abordagens endoscópicas têm se tornado cada vez mais populares em detrimento das abordagens externas⁴. Uma das características mais relevantes do PI é a sua elevada taxa de recorrência que, de acordo com a literatura, pode atingir os 78%⁴.

MATERIAL E MÉTODOS

Foi conduzido um estudo do tipo retrospectivo cujo objectivo foi avaliar a casuística do serviço de ORL do Hospital de Braga no que respeita ao tratamento cirúrgico dos PI. Foram analisados os processos clínicos dos doentes com diagnóstico histológico de PI no período entre Janeiro de 1990 e Janeiro de 2014 e recolhidos dados demográficos, clínicos, imagiológicos e cirúrgicos relevantes. Excluíram-se os doentes cuja cirurgia foi realizada noutra instituição, aqueles em que não foi possível obter todos os dados pretendidos

TABELA 1

Classificação de Krouse (adaptada)⁶

Classificação de Krouse	
Estadio I	Tumor limitado à cavidade nasal, sem extensão aos seios peri-nasais.
Estadio II	Tumor envolve o complexo óstio-meatal, labirinto etmoidal e/ou a porção medial do seio maxilar, com ou sem envolvimento da cavidade nasal.
Estadio III	Tumor envolve a parede lateral, anterior, posterior, superior ou inferior do seio maxilar, seio esfenoidal ou seio frontal.
Estadio IV	Tumor com extensão às estruturas contíguas extra-nasossinusais, tais como a órbita, compartimento intracraniano ou fossa pterigopalatina. Qualquer tumor associado a malignidade.

e aqueles perdidos do seguimento. Todos os doentes foram estadiados segundo a classificação de Krouse⁶ (Tabela 1), tendo em conta os dados endoscópicos e imagiológicos pré-operatórios, de modo a uniformizar resultados e a compará-los com os obtidos noutros estudos publicados. Nas cirurgias foram utilizadas abordagens endoscópicas, externas ou combinadas, dependendo da localização e extensão da lesão e da experiência pessoal do cirurgião. A análise estatística dos dados foi realizada com recurso ao programa SPSS® (Statistic Package for Social Sciences, v. 20). O nível de significância estatística adoptado foi de $p < 0.05$.

RESULTADOS

Obteve-se um total de 24 PI operados, correspondendo a uma amostra de 19 doentes, sendo 15 (79%) do sexo masculino e 4 (21%) do sexo feminino. As idades dos doentes variaram entre os 19 e os 86 anos, com média±desvio-padrão igual a 50,1±18,1 anos. No que respeita à lateralidade, a lesão localizava-se na fossa nasal direita em 8 (42%) casos e na fossa nasal esquerda em 11 (58%). Nesta série não foram detectadas lesões bilaterais ou multicêntricas. Quanto aos sintomas de apresentação, todos os doentes manifestavam queixas de obstrução nasal, 7 (37%) apresentavam queixas de rinorreia, 3 (16%) alterações do olfacto, 2 (11%) epistáxis e 2 (11%) cefaleias. Nos casos de recidiva, os doentes permaneciam assintomáticos sendo a mesma detectada nas consultas de seguimento, através do exame físico complementado com exames imagiológicos e endoscópicos, e posterior confirmação com exame histopatológico. As lesões foram estadiadas de acordo com a classificação de Krouse, sendo registados 4 (17%) casos no estágio I, 12 (50%) no estágio II e 8 (33%) no estágio III. Nesta série não houve registo de lesões no estágio IV. No que respeita à presença de hábitos tabágicos, 12 (63%) doentes eram fumadores e os restantes 7 (37%) não-fumadores.

Quanto ao tratamento cirúrgico, em 17 (71%) casos realizou-se cirurgia endoscópica nasossinusal (CENS), 4 (17%) realizaram abordagem combinada

e nos restantes 3 (12%) uma via externa. Nos casos de abordagens externas/combinadas as técnicas cirúrgicas utilizadas foram a maxilectomia parcial (através de incisão paralateronasal) e a antrostomia anterior (através de incisão incisão vestibular oral). Não foram registadas nenhuma complicação pós-operatória imediata. Quanto a complicações tardias, apenas se registou um caso de parestesias da região malar após antrostomia anterior. No presente estudo registaram-se 5 (26%) casos de recidiva, que foram detectadas, em média, 26,6 meses após a cirurgia primária, tendo este período de tempo variado entre os 3 e os 61 meses. Registaram-se dois casos de recidiva após CENS, um caso após abordagem combinada e dois casos após abordagem externa. O período de seguimento variou entre 17 e 96 meses, sendo a média \pm desvio-padrão igual a 36,4 \pm 23,1 meses.

Concomitantemente foi realizada uma análise estatística inferencial de modo a correlacionar a taxa de recidiva com outras variáveis, nomeadamente: idade à data da cirurgia, técnica cirúrgica utilizada, estadio de Krouse ou presença de hábitos tabágicos. Em nenhum dos casos foi verificada uma correlação estatisticamente significativa (teste exacto de Fisher ou teste de χ^2 $p > 0.05$) (Tabela 2).

TABELA 2

Resumo da análise estatística inferencial

	Recidiva n (%)	Valor de p
Idade		
>50 anos	4/14 (28,6%)	0,268
30 – 49 anos	0/7 (0%)	
< 29 anos	1/3 (33,3%)	
Estadio de Krouse		
I	0/4 (0%)	0,283
II	2/12 (16,7%)	
III	3/8 (37,5%)	
Técnica Cirúrgica		
Endoscópica	2/17 (11,8%)	0,095
Combinada	1/4 (25%)	
Externa	2/3 (66,7%)	
Tabagismo		
Sim	4/15 (26,7%)	0,360
Não	1/9 (11,1%)	

DISCUSSÃO

O PI corresponde ao tumor benigno nasossinusal mais frequente, depois do osteoma, representando a indicação cirúrgica mais comum no que respeita a neoplasias benignas⁷. Afecta predominantemente indivíduos do sexo masculino, entre a 5ª e a 6ª décadas de vida, o que se verificou no presente estudo^{1,2,7,8}.

A etiologia do PI permanece desconhecida, sendo a associação ao Vírus do Papiloma Humano (HPV) ainda

objecto de controvérsia. Foram publicados diversos estudos nos quais foi detectado ADN do HPV em amostras de PI, sendo os serótipos^{5,11,16,18} os mais prevalentes^{7,9}. Alguns autores sugerem uma associação entre o HPV e as alterações displásicas e a evolução para carcinoma espinocelular (CEC), no entanto, o mecanismo patogénico permanece desconhecido. Uma das teorias propostas é a ocorrência de metaplasia pavimentosa, com substituição do epitélio respiratório por epitélio pavimentoso, condicionando a existência de zonas transição epiteliais, as quais, em virtude da sua maior taxa de replicação celular, poderão estar vulneráveis à carcinogénese¹⁰.

Outros autores mencionam a exposição ao fumo do tabaco ou poluentes ambientais como agentes etiológicos do PI mas esta relação não se encontra totalmente esclarecida². A presença de hábitos tabágicos tem sido relacionada com um aumento na taxa de recidiva do PI¹¹. Nesta série, apesar de 63% dos doentes apresentarem história de tabagismo, não se verificaram diferenças estatisticamente significativas no que respeita à taxa de recidiva. Contudo, o tamanho reduzido da amostra em estudo, deve ser tido em conta nesta interpretação.

A manifestação clínica mais comum do PI é a obstrução nasal unilateral, podendo a mesma ser associada a outros sintomas nasossinuais, nomeadamente, rinorreia, epistaxis, hiposmia, pressão facial ou cefaleias^{1,8}. Na nossa casuística obteve-se um espectro de manifestações clínicas semelhantes. De salientar que a sintomatologia é inespecífica o que pode condicionar atraso no diagnóstico e tratamento. No entanto, a presença de lesões endonasais unilaterais devem levantar a suspeição de patologia neoplásica. Macroscopicamente o PI apresenta um aspecto polipóide e granular com origem na parede lateral da fossa nasal. No entanto, foram já descritas lesões com origem no septo nasal, sistema lacrimal, ouvido médio e nasofaringe¹.

Nesta série todos os doentes foram avaliados pré-operatoriamente com tomografia computadorizada dos seios peri-nasais (TC-SPN), na maioria dos casos complementada por ressonância magnética nuclear (RMN). A avaliação imagiológica dos tumores nasossinuais, onde se inclui o PI, deve incluir ambas as técnicas, uma vez que as mesmas se complementam. Apesar da TC oferecer melhor detalhe ósseo, a RMN obtém uma melhor definição dos tecidos moles, permitindo a distinção entre a lesão tumoral e a patologia inflamatória associada (Figura 2). Tal facto permitirá, não só, um estadiamento pré-operatório mais preciso, como também delinear mais correctamente a estratégia cirúrgica terapêutica¹². Vem sendo enfatizada na literatura médica a relação entre os achados imagiológicos, nomeadamente foco de osteíte/hiperostose, e o local de implantação do PI, facto que deve ser levado em conta no planeamento cirúrgico^{9,13} (Figuras 3 e 4).

FIGURA 2

Ressonância Magnética Nuclear (corte coronal) – A: ponderação T1; B: ponderação T2

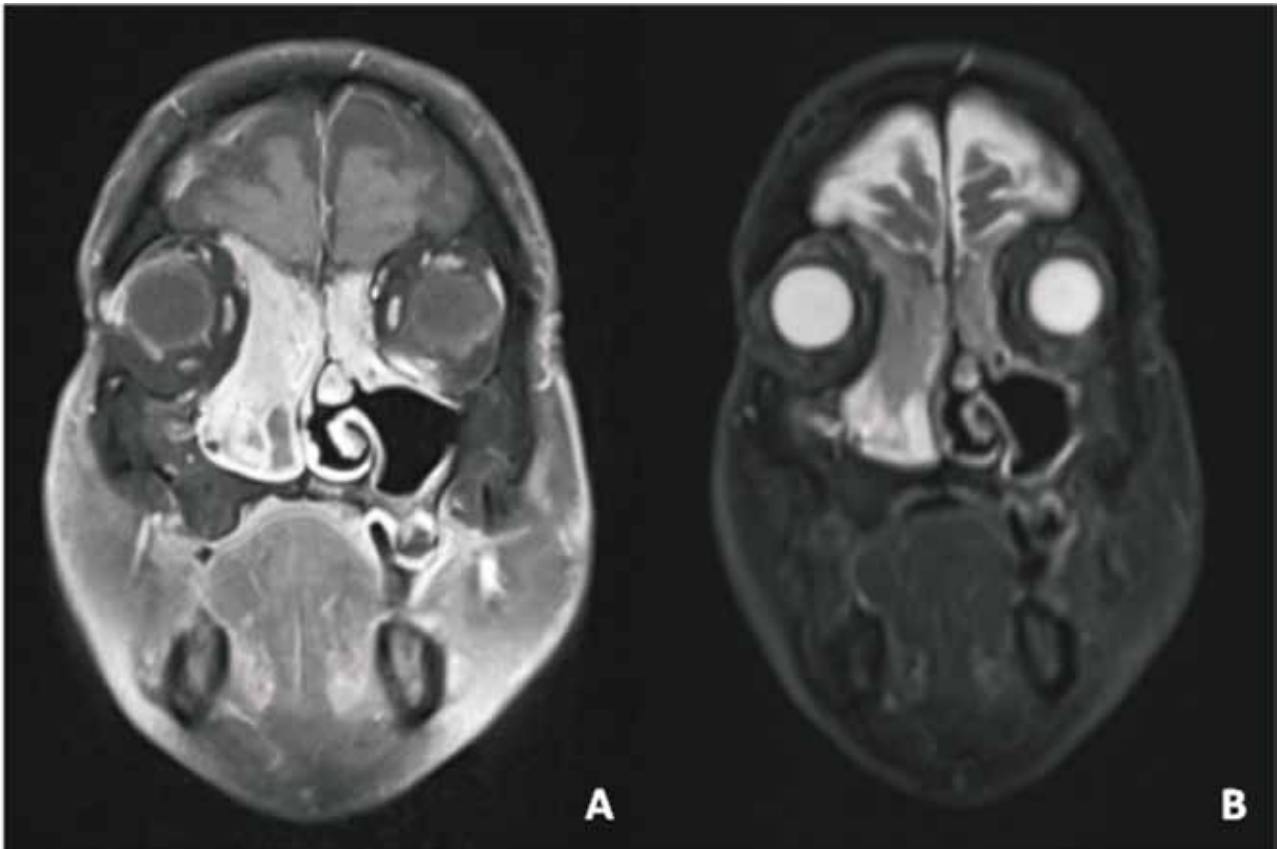


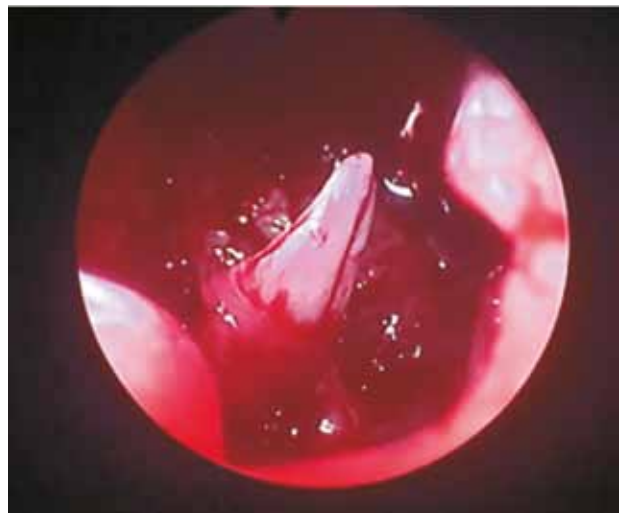
FIGURA 3

Tomografia Computorizada dos SPN (corte axial) – foco de hiperostose na parede anterior do seio maxilar direito



FIGURA 4

Aspecto endoscópico do local de implantação de um papiloma invertido



Na nossa série foi possível obter o diagnóstico histológico pré-operatoriamente em 63% dos casos (n=12), através da realização de biópsia. Segundo dados da literatura, a sensibilidade e a especificidade da biópsia para o diagnóstico de PI, ronda os 78% e os 96%, respectivamente¹⁴.

O tratamento do PI envolve a sua exérese cirúrgica

completa, incluindo o mucoperiosteio do local de implantação. Tradicionalmente eram utilizadas abordagens externas para o tratamento cirúrgico destas lesões, sendo utilizadas vias de acesso como a rinotomia lateral, o midfacial degloving e a antrostomia anterior. No entanto, com o desenvolvimento da endoscopia, as abordagens endoscópicas foram sendo cada vez mais utilizadas tornando-se o método de eleição na abordagem desta patologia. Duas meta-análises recentes concluíram que as abordagens endoscópicas apresentam resultados, no mínimo semelhantes, em termos de controlo tumoral, com as vantagens adicionais de: ausência de cicatriz facial, menor tempo de internamento e menor dor no pós-operatório^{15,16}.

Algumas circunstâncias clínicas podem contra-indicar uma abordagem endoscópica, tais como: envolvimento extenso da mucosa do seio frontal e/ou célula supra-orbitária, extensão orbitária ou intra-dural, presença concomitante de malignidade ou alterações cicatriciais secundárias a cirurgia prévia⁷.

Uma das limitações do presente estudo é o tamanho reduzido da amostra, que limitou a realização de uma análise estatística mais abrangente, de modo a verificar quais os factores preditivos de recidiva. Por outro lado, os casos operados mais recentemente apresentavam um período de seguimento relativamente curto, que poderá enviesar por defeito a taxa de recorrência.

CONCLUSÕES

O PI é um dos tumores mais frequentes da região nasossinusal que se caracteriza pela sua agressividade local, potencial de malignização e elevada taxa de recorrência após tratamento cirúrgico. A abordagem endoscópica dos PI é cada vez mais aceite como a técnica cirúrgica de eleição, não obstante, a possibilidade de realização de uma abordagem externa/combinada, em casos seleccionados.

Referências bibliográficas:

- 1 – Peng, P, Har-El, G. Management of Inverted Papillomas of the Nose and Paranasal Sinuses. *American Journal of Otolaryngology – Head and Neck Medicine and Surgery*. 2006. 27:233-37.
- 2 – Henriquez, M., Altuna, X., Zulueta, A., Gorostiaga, F. et al. Papiloma Invertido: Tratamiento e Evolución. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2003. 54: 242-248.
- 3 – Barnes, L., Evenson, JW., Reichart, P., Sidransky, D., WHO Classification of Tumours. *Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours*. Vol.9 IARC Press. 28-33.
- 4 – Xiao-Ting, W., Peng, L., Xiu-Qing, W., Hai-Bo, W. et al. Factors Affecting Recurrence of Sinonasal Inverted Papilloma. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2013. 270: 1349-1353.
- 5 – Choi, JW., Kim, SG., Kim, YM., Yoon, YH., et al. Clinical and Histologic Features of Inverted Papilloma-associated Malignancy. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2012. 269: 2349-2354.
- 6 – Krouse JH. Development of a staging system for inverted papillomas. *Laryngoscope*. 2000. 110: 965-8.
- 7 – Nicolai, P., Castelnuovo, P. *Benign Tumors of the Sinonasal Tract*. Flint, PW., Haughey, BH., Lund, VJ., Niparko, JK. (Eds.) *Cummings Otolaryngology Head and Neck Surgery*. 5ª Ed. Elsevier. Págs: 2067-2075.
- 8 – Molina, JP, Pendas, JL, Tapia, JP, Marcos, CA., et al. Inverted Sinonasal Papillomas. Review of 61 cases. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2009. 60 (6): 402-408.

9 – Carta, F., Verillaud, B., Herman, P., Role of Endoscopic Approach in the Management of Inverted Papilloma. *Current Opinion in Otolaryngology and Head and Neck Surgery*. 2011. 19: 21-24.

10 – Govindaraj, S., Wang, H., Does human papilloma virus play a role in sinonasal inverted papilloma? *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2014. 22: 47–51.

11 – Moon, IJ., Lee, DY., Suh, MW., Han, DH., et al. Cigarette Smoking Increases Risk of Recurrence for Sinonasal Inverted Papilloma. *Am J Rhinol Allergy*. 2010. 325-329.

12 – Wassef, S., Batra, P., Barnett, S., Skull Base Inverted Papilloma: A Comprehensive Review. *International Scholarly Research Network Surgery*. 2012. Artigo 175903.

13 – Bhalla, RK, Wright, ED. Predicting the site of attachment of sinonasal inverted papilloma. *Rhinology*. 2009. 47: 345-348.

14 – Han, M., Lee, B., Jang, Y., Chung, Y., Clinical value of Office-based endoscopic incisional biopsy in diagnosis of nasal cavity masses. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2010. 143(3): 341-347.

15 – Busquets, JM., Hwang, PH., Endoscopic Resection of Sinonasal Inverted Papilloma: a meta-analysis. *Otolaryngology Head and Neck Surg*. 2006. 134: 476-482.

16 – Lund, V., Stammberger, H., Nicolai, P., et al. European Position on Paper on Endoscopic Management of Tumours of the Nose, Paranasal Sinuses and Skull Base. *Rhinol Suppl*. 2010. 1-143.