

Mucopiocele frontal gigante: Abordagem endoscópica Draf III

Giant frontal mucopyocele: Draft III approach

Rafaela Veloso-Teles • Ana Sousa • Sérgio Caselhos • Roberto Estevão • Vânia Henriques • Francisco Moreira da Silva • Rita Moura • Fausto Fernandes

RESUMO

Os mucocelos são lesões quísticas dos seios perinasais de conteúdo mucóide, que podem resultar em erosão óssea com extensão extracraniana, intracraniana ou orbitária. Denominam-se mucopioceles sempre que ocorre infecção do seu conteúdo. A abordagem cirúrgica dos mucocelos frontais constitui um desafio para o cirurgião ORL, havendo autores que defendem o uso de técnicas exclusivamente endoscópicas que vão desde a marsupialização da lesão até procedimentos do tipo Draf III, enquanto outros optam por combinar abordagens osteoplásticas.

Apresentamos o caso de um doente do sexo masculino, de 74 anos, referenciado à consulta externa de ORL do CHAA por tumefacção da região frontal e supraciliar direita, com 10 meses de evolução e crescimento progressivo, tendo sido estabelecido o diagnóstico imagiológico de mucocelo frontal gigante. O doente foi submetido a cirurgia endoscópica nasossinusal, tendo sido utilizado o procedimento Draf tipo III, sem intercorrências peri-operatórias.

Após um ano de seguimento o doente não apresenta sintomas ou sinais clínicos, endoscópicos ou imagiológicos de recidiva.

Palavras-Chave: Mucocelo, Mucopiocele, Cirurgia Endoscópica Nasossinusal, Lothrop Modificado, Draf III

ABSTRACT

Mucoceles are mucous-filled cystic lesions of the paranasal sinuses that can result in bone erosion with extracranial, intracranial or orbital extension. They are denominated mucopyocele if there is infection of the mucous filling. The surgical approach when they are localized in the frontal sinus is a challenge for the ENT surgeon; some authors prefer exclusively endoscopic techniques that go from marsupialization to Draf III procedures, while others advocate combined osteoplastic approaches.

We report a case of 74 year-old man who presented at our hospital center (CHAA) outpatient clinic with right frontal tumefaction with 10 month evolution and slow growing. After imagiological study, it was established the diagnosis of a giant frontal mucocele. The patient was submitted to endoscopic sinus surgery, through a Draf type III frontal sinusotomy, without any complications.

After one-year follow-up, there were no symptoms or clinical, endoscopic or imagiological signs of mucocele recurrence.

Keywords: Mucocele, Mucopyocele, Endoscopic Sinus Surgery, Modified Lothrop, Draf III

INTRODUÇÃO

Os mucocelos são lesões quísticas benignas, expansivas dos seios perinasais (SPN), delimitados por epitélio do tipo respiratório, pseudoestratificado, que se desenvolvem por acumulação de secreções mucóides no contexto de obstrução crónica dos ostia de drenagem dos respectivos seios afectados^{1,2}.

O primeiro autor a descrever as características clínicas de um mucocelo foi Langenbeck em 1818, mas o termo só foi introduzido em 1896 por Rollet. A primeira descrição histológica desta entidade só foi feita em 1901 por Onodi¹.

A sua prevalência máxima ocorre entre a 4ª e a 6ª década de vida, sem preferência de género². Ocorrem de forma mais frequente no seio frontal (60%) e no etmóide (30%), no entanto, o esfenóide e o seio maxilar também podem ser afectados. Os mucocelos do seio maxilar representam menos de 10% dos casos, sendo que a história pregressa de cirurgia de Caldwell-Luc está quase sempre presente^{1,3}. Embora haja casos relatados na infância, nomeadamente em crianças com fibrose cística, o seu aparecimento antes dos 10 anos é raro, uma vez que o seio frontal ainda está em desenvolvimento⁴.

Rafaela Veloso-Teles

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Ana Sousa

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Sérgio Caselhos

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Roberto Estevão

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Vânia Henriques

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Francisco Moreira da Silva

Assistente Hospitalar de Otorrinolaringologia do CHAA, Hospital Srª da Oliveira

Rita Moura

Assistente Hospitalar de Otorrinolaringologia do CHAA, Hospital Srª da Oliveira

Fausto Fernandes

Director de Serviço de Otorrinolaringologia do CHAA, Hospital Srª da Oliveira

Correspondência:

Rafaela Veloso Teles
Serviço de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave
Rua dos Cutileiros, Creixomil
4835-044 Guimarães
Telefone: 253 540 330, Fax: 253 513 592
rafaelateles84@gmail.com

A sua etiologia está relacionada com factores de agressão ou inflamação locais tais como a rinosinusite crónica, a polipose nasal, rinite alérgica, neoplasias (ex. osteomas), displasia fibrosa óssea, alterações anatómicas, cirurgias prévias, ou trauma^{1,2,4}.

A apresentação clínica segue normalmente um curso insidioso, com crescimento expansivo da lesão, que deforma as estruturas ósseas e tecidos moles circundantes, podendo haver extensão orbitária, extracraniana ou intracraniana por erosão das paredes ósseas do seio que se vão tornando cada vez mais adelgaçadas. Por vezes ocorre infecção do seu conteúdo mucóide denominando-se nesses casos de mucopiocelos^{5,6}. Os mucocelos gigantes são raros e adquirem essa designação quando apresentam extensão extracraniana, orbitária e/ou intracraniana e se manifestam com deformidade craniofacial, alterações orbitárias e/ou neurológicas⁴.

Apesar dos avanços no tratamento cirúrgico, a abordagem dos mucocelos frontais permanece um desafio cirúrgico. A cirurgia endoscópica nasossinusal (CENS) pode ser usada isoladamente na simples marsupialização da lesão ou em procedimentos mais alargados como a sinusotomia frontal do tipo Draf III (Lothrop modificado), ou pode ser associada a vias externas osteoplásticas⁵.

O objectivo deste trabalho é apresentar o caso de um doente com um mucocelo frontal gigante submetido a cirurgia endoscópica nasossinusal que incluiu uma sinusotomia frontal tipo Draf III, bem como realizar uma revisão da literatura sobre o tema.

CASO CLÍNICO

AM, 74 anos, sexo masculino referenciado a ORL por apresentar tumefacção frontal, na região da glabella e supra-orbitária direita, de crescimento progressivo com cerca de 6 meses de evolução, associada a cefaleia e

pressão facial ipsilateral. O doente negava sintomas de obstrução ou congestão nasal, rинorreia, epistáxis ou outras queixas rinológicas. O doente negava ainda história de cirurgia nasal prévia, mas referia um traumatismo crânio-encefálico ocorrido há cerca de 30 anos. No exame objectivo apresentava a tumefacção descrita, sem dor à palpação ou sinais inflamatórios evidentes, sem alterações da mobilidade ocular ou do exame neurológico (Figura 1). A rinoscopia anterior não permitiu identificar quaisquer alterações, tendo a nasofibrosopia revelado fossas nasais permeáveis, sem neoformações ou alterações das características da mucosa nasal.

O estudo por tomografia computadorizada (TC) mostrou uma lesão expansiva do seio frontal direito, isodensa relativamente aos tecidos moles, com acentuado abaulamento e adelgaçamento/erosão das paredes com discreta captação periférica de contraste, compatível com mucocelo. A lesão provocava deformação dos tecidos moles epicranianos na região frontonasal, com expressão no compartimento endocraniano com ligeira moldagem do lobo frontal direito, bem como extensão para a órbita onde contactava com o globo ocular (Figura 2).

A ressonância magnética (RM) crânio-encefálica confirmou a presença de lesão expansiva centrada no seio frontal à direita, com isossinal em T2 e hipersinal em T1 espontâneo, sem captação de contraste, fazendo erosão e moldagem óssea da parede anterior do seio, com efeito de massa sobre os tecidos moles epicranianos e comprometimento da parede posterior com extensão para o interior da cavidade intracraniana permanecendo extra-dural.

Adicionalmente havia erosão do rebordo orbitário superior direito com extensão para a cavidade orbitária e contacto com o globo ocular no limite antero-superior (Figura 3).

FIGURA 1

Tumefacção frontal direita



FIGURA 2

Tomografia Computorizada: 1) Corte Coronal; 2) Corte Axial; 3) Corte Sagital

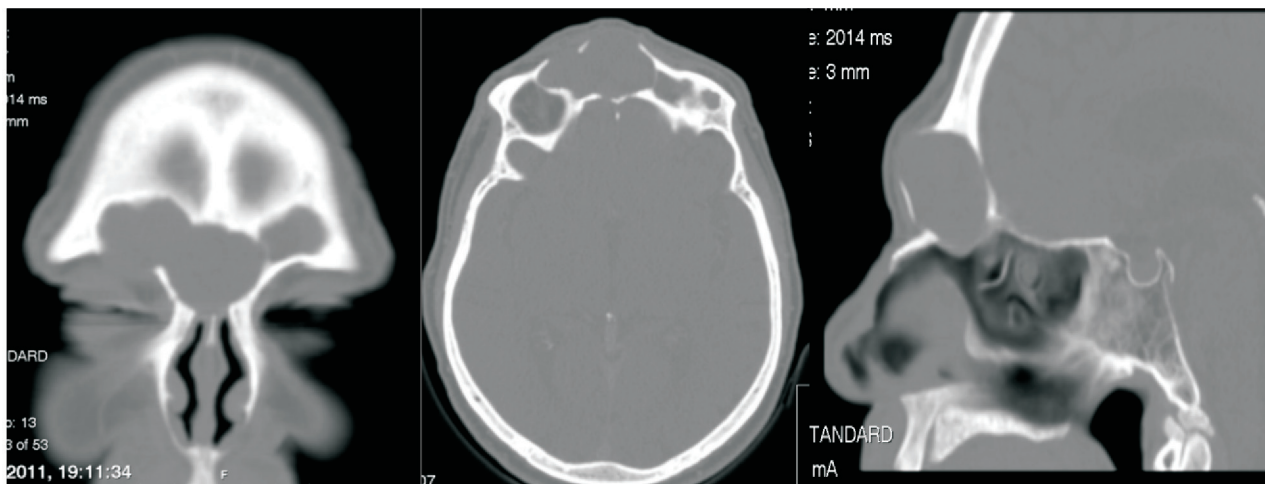


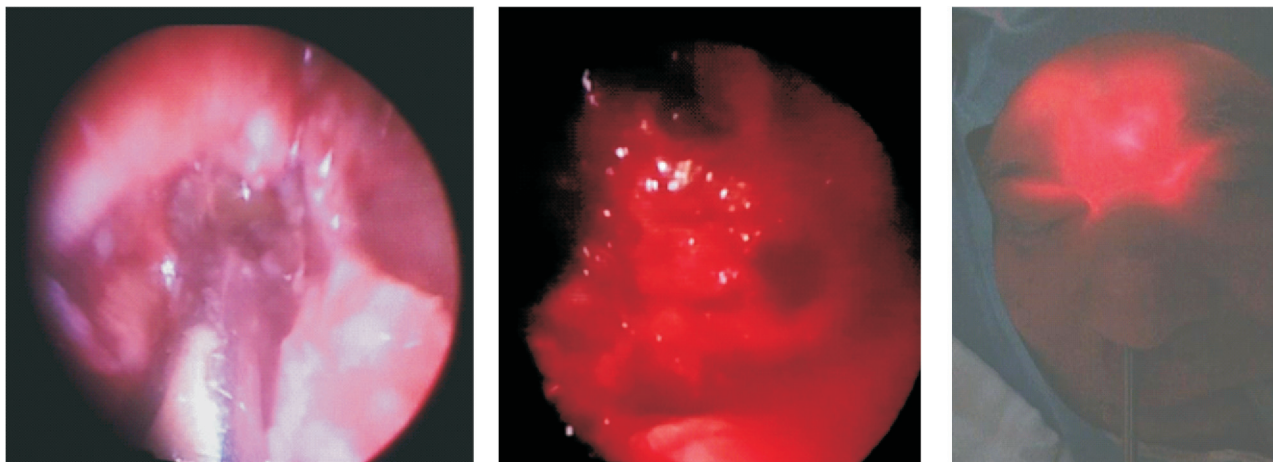
FIGURA 3

RM: 1) Corte Axial em T1; 2) Corte Sagital em T1; 3) Corte Coronal em T2



FIGURA 4

1) Identificação do ostium frontal direito com drenagem de conteúdo mucóide; 2) Vista endoscópica do seio frontal após o procedimento de Lothrop modificado; 3) Imagem da transiluminação do seio frontal



Pré-operatoriamente realizou um controlo analítico (hemograma e bioquímica) com todos os parâmetros dentro dos limites da normalidade.

O doente foi submetido a cirurgia endoscópica nasossinusal (CENS) tendo-se verificado abaulamento e adelgaçamento do pavimento do seio frontal direito e que ao ser removido permitiu a drenagem de conteúdo mucóide abundante. No interior do seio frontal observou-se mucosa hiperplásica que foi removida, bem como uma zona de deiscência a nível do septo intersinusal através da qual se observou também saída de conteúdo mucóide com origem no seio frontal

esquerdo. Assim, dada a extensão da lesão e os sinais inflamatórios associados, procedeu-se à remoção bilateral do pavimento do seio frontal, do septo intersinusal, porção antero-superior da cartilagem quadrangular e excisão de mucosa hiperplásica do seio frontal (Figura 4).

O pós-operatório decorreu sem incidentes, verificando-se redução da deformidade craniofacial imediatamente após a cirurgia. O doente foi medicado com antibioterapia endovenosa (ceftriaxone), corticoide sistémico e analgésicos, tendo tido alta ao 5º dia de pós-operatório.

FIGURA 5

TC pós-operatória

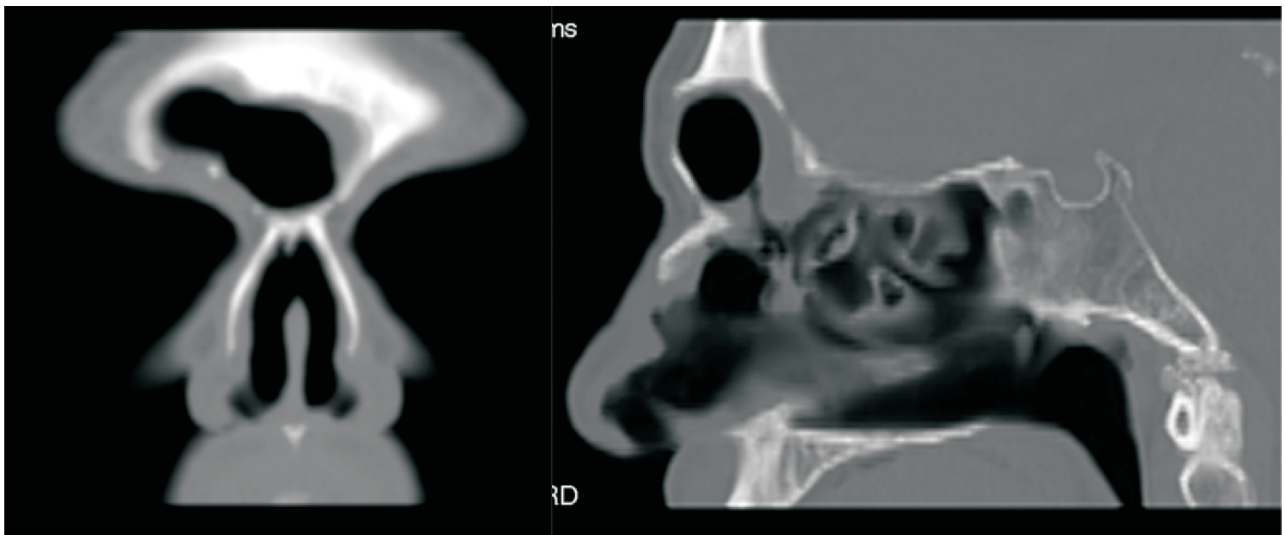
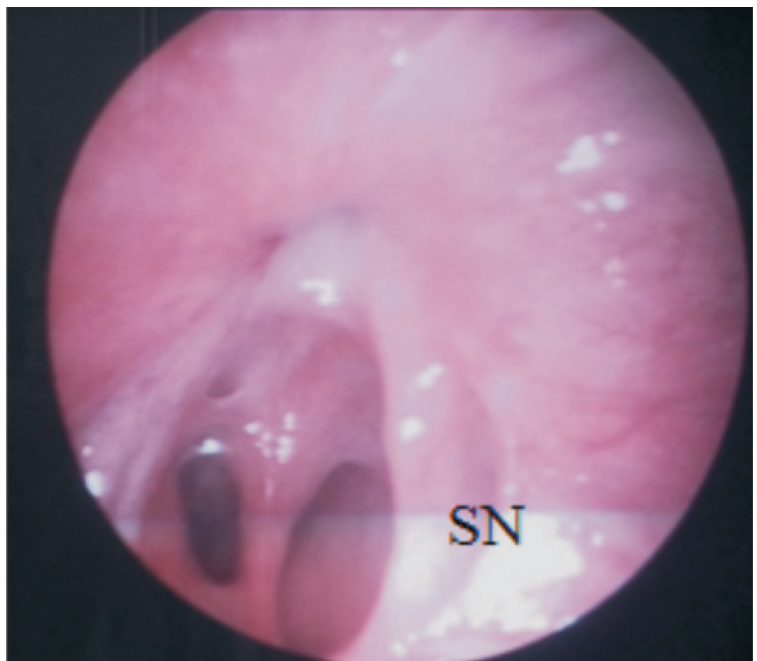


FIGURA 6

1) Fotografia de perfil pós-operatória, verificando-se ausência de tumefacção frontal; 2) imagem endoscópica pós-operatória, com remanescente do septo nasal (SN) e comunicação ampla do seio frontal com a cavidade nasal.



Ao fim do 1º ano de seguimento o doente encontra-se assintomático e a TC de controlo demonstrou resolução da expansão localizada no seio frontal direito, com solução de continuidade na vertente anterior do septo nasal e recessos frontais em concordância com a cirurgia realizada, e preenchimento residual do seio frontal por densidade de tecidos moles (Figura 5). A imagem endoscópica nasal demonstra ampla comunicação do seio frontal com a fossa nasal (Figura 6).

DISCUSSÃO

Os mucocelos provocam a expansão, remodelação e reabsorção das paredes ósseas do seio atingido, muitas vezes comprometendo a sua integridade e ocasionalmente afectando as estruturas vizinhas, intracranianas ou orbitárias. A patofisiologia deste mecanismo de reabsorção ainda é pouco clara, mas pensa-se que envolve fenómenos de osteólise provocados pela redução da vascularização óssea devido ao mecanismo de compressão e/ou pela acção de mediadores inflamatórios presentes na mucosa de revestimento do mucocelo (ex. IL1, receptores de adesão endotelial tais como a ICAM-1 e selectina-E)⁷.

Os sintomas que geralmente precedem o diagnóstico são: a cefaleia frontal; a pressão facial e/ou obstrução nasal. Se não forem tratados atempadamente cursam com deformidade craniofacial, osteíte e osteomielite frontal; com complicações orbitárias que incluem restrição da mobilidade ocular, amaurose, diplopia, proptose, celulite ou abscesso orbitário; ou com complicações intracranianas tais como meningite, meningoencefalite, abscesso cerebral, convulsões ou fístula de líquido cefalorraquidiano (LCR)^{2,4,5}. Quando há infecção do mucocelo, há risco aumentando de complicações orbitárias e intracranianas.

O diagnóstico baseia-se nos exames imagiológicos. A TC é o melhor exame inicial quando se suspeita de um mucocelo, demonstrando uma imagem isodensa homogénea com perda do contorno normal do SPN e que pode captar contraste perifericamente se estivermos perante um mucopiocelo^{2,8}. A TC permite avaliar a extensão orbitária e intracraniana, a redução da espessura e a erosão das paredes do SPN envolvido. Os diagnósticos diferenciais de lesões ocupantes de espaço que podem mimetizar o mucocelo são os seguintes: encefalocelos, schwannomas, cordomas, condromixoma, neurofibroma, adenoma da hipófise, cistos retrobulbares e neoplasias malignas dos SPN⁴.

A ressonância magnética (RM) está indicada no caso de haver dúvida diagnóstica e na avaliação da extensão da lesão, tipicamente apresentam hipossinal em T1 e hipersinal em T2. O contraste com gadolínio é útil para distinguir os mucocelos de lesões neoplásicas^{4,8}. No caso apresentado, a imagem da lesão na RM tinha hipersinal em T1 e issosinal em T2, o que pode estar relacionado com o facto do muco infectado ser mais espesso e com maior conteúdo proteico.

O tratamento dos mucocelos frontais permanece um desafio, podendo-se utilizar vias de abordagem externa combinadas com CENS ou abordagens exclusivamente endonasais.

Na década de 60, popularizou-se a técnica de remoção do mucocelo via abordagem externa osteoplástica com cranialização do seio frontal e/ou obliteração do seio com gordura ou músculo^{5,6}. Porém, apesar desta técnica ter um elevado grau de sucesso, aproximadamente 93% aos 8 anos de seguimento segundo Hardy e Montgomery⁹, também demonstrou alta morbidade, com taxas de complicações maior a atingir os 20%¹⁰. As complicações intra-operatórias mais frequentes eram as fístulas de LCR, a exposição da dura e a lesão da órbita.¹¹ As intercorrências pós-operatórias incluíam a cefaleia, infecção da ferida cirúrgica, parestesia de V1, afundamento, bossa ou necrose do retalho osteoplástico ou cicatriz hipertrófica.¹¹

O avanço tecnológico na cirurgia endoscópica nasossinusal (CENS) tornou esta via de acesso numa opção na restauração da ventilação e drenagem fisiológica dos SPN¹⁰. Em 1989, Kennedy et al descreveram o tratamento endoscópico por marsupialização de mucocelos paranasais, com tratamento bem-sucedido em 15 de 18 (83,3%) doentes com um seguimento médio de 17,4 meses¹². Estudos subsequentes, de revisão, com a utilização desta técnica endoscópica em casos de mucocelo com erosão da órbita ou da base de crânio revelaram necessidade de reintervenção com CENS em 25, 27, 30% respectivamente segundo Hurley et al, Khong et al and Sautter et al⁵.

Em 1991, Draf descreveu uma abordagem exclusivamente endoscópica que conceptualmente se baseava numa técnica outrora descrita por Lothrop em 1914, que combinava uma técnica externa com técnica intranasal para a remoção do pavimento do seio frontal e seu septo. A técnica descrita passou a designar-se por procedimento endoscópico Lothrop modificado ou Draf III, cujo objectivo é criar uma via de drenagem comum e ampla de ambos os seios frontais ao ressecar a porção superior do septo nasal, o septo interfrontal e o pavimento de ambos os seios¹³.

A abordagem cirúrgica endoscópica do seio frontal foi classificada por Draf em três tipos: Tipo I que consiste na drenagem simples do seio frontal através da etmoidectomia anterior e remoção de células que se projectam no recesso frontal; Tipo II com extensão da drenagem do seio através da remoção do pavimento do seio frontal entre a lâmina papirácea e o corneto médio (IIa) ou o septo nasal (IIb); e Tipo III que requer a realização desse alargamento na drenagem do seio frontal em ambas as fossas nasais, além da remoção parcial da porção superior do septo nasal e do septo interfrontal¹⁴.

O acesso Draf II é o preconizado na marsupialização simples dos mucocelos frontais, enquanto o acesso tipo Draf III ou de Lothrop modificado permite a

marsupialização alargada do mucocelo, criando uma comunicação ampla nasofrontal. Este último procedimento tem a vantagem de permitir uma melhor visualização endoscópica do seio frontal, aumento da angulação com controlo da patologia lateral, que seria impossível de alcançar com o uso de um campo cirúrgico ipsilateral limitado, a utilização de instrumentação por ambas as fossas nasais e menor risco de recidiva¹⁵.

As abordagens combinadas, com via externa e CENS, têm sido preferidas no caso de mucocelos gigantes, nomeadamente se houver invasão orbitária ou erosão significativa da parede externa do seio frontal⁴, como o caso que apresentamos. O procedimento de Lothrop modificado tem ganho popularidade recentemente como método minimamente invasivo alternativo à abordagem externa. Um estudo publicado em 2009 por Anderson e Sindwani demonstrou que o procedimento de Lothrop modificado é um procedimento eficaz comparativamente às abordagens externas, com taxa de complicações major inferiores a 1% e minor inferiores a 4%, e necessidade de reintervenção inferior a 13.9%¹⁰. As contra-indicações deste procedimento são: hipoplasia ou ausência do seio frontal; anatomia intranasal não favorável, nomeadamente um diâmetro antero-posterior curto entre o limite anterior da base de crânio e a espinha nasal do frontal (menor que 1,5 cm), paciente não colaborante no seguimento e a inexperiência do cirurgião¹¹.

O acesso endoscópico é considerado uma abordagem segura e bem-sucedida no tratamento dos mucocelos e mucopiocelos do seio frontal, com a vantagem de menor co-morbilidade, recuperação pós-operatória precoce, facilita a vigilância endoscópica e imagiológica pós-operatória⁸. O seguimento apertado com endoscopia e estudo imagiológico é essencial na detecção atempada da reestenose do ostium permitindo a reintervenção precoce sem complicações desnecessárias. Os doentes que se apresentam sem recidiva ao fim de um ano pós-operatório tendem a ter resultados a longo-prazo favoráveis¹⁰.

Assim, pelas vantagens supra descritas e pelos achados intra-operatórios óptimos por utilizar o procedimento Lothrop modificado no tratamento deste mucopiocelo gigante, sem que se tivesse registado qualquer complicação intra ou peri-operatória e sem sintomas ou sinais clínicos, endoscópicos ou imagiológicos de recidiva ao fim de um ano pós-operatório.

CONCLUSÃO

Os mucocelos são lesões expansivas dos SPN que podem causar complicações severas intracranianas ou orbitárias, pelo que devem ser diagnosticadas e tratadas atempadamente. O diagnóstico é estabelecido imagiológicamente. No caso apresentado, o tratamento com CENS utilizando o procedimento Draf III (Lothrop modificado) permitiu a resolução da lesão, não havendo recidiva após 1 ano de seguimento.

Referências bibliográficas

- 1-Vicente A, Chaves A, Takahashi E et al. Frontoethmoidal mucocelos: a case report and literature review. *Rev Bras Otorrinolaringol*, 2004;70(6): 850-4.
- 2-Belirti A, Olgusu V, Olgu N. Frontal Mucocele Presenting with Forehead Subcutaneous Mass: an unusual presentation. *Turkish Neurosurgery*, 2008;18(2): 200-3.
- 3-Dispenza C, Saraniti C, Caramanna C et al. Endoscopic treatment of maxillary sinus mucocele. *Acta Otorhinolaryngol Ital*, 2004 Oct;24(5):292-6.
- 4-Suri A, Mahapatra A, Gaikwad S et al. Giant Mucoceles of the frontal sinus: a series and review. *Journal of Clinical Neuroscience*, 2004;11(2): 214.
- 5-Sautter N, Citardi M, Pery J et al. Paranasal sinus mucoceles with skull-base and/or orbital erosion: Is the endoscopic approach sufficient? *Otolaryngol Head and Neck Surgery*, 2008;139: 570-4.
- 6-Herndon M, McMains K, Kountakis S. Presentation and management of extensive fronto-orbital-ethmoid mucoceles. *American J of Otolaryngology Head and Neck Medicine and Surgery*, 2007;28: 145-7.
- 7-Lund VJ, Henderson B, Song Y. Involvement of cytokines and vascular adhesion receptors in the pathology of fronto-ethmoidal mucoceles. *Acta Otolaryngol*, 1998; 113:540-5.
- 8-Sakae F, Filho B, Lessa M et al. Bilateral Frontal Sinus Mucocele. *Rev Bras Otorrinolaringol*, 2006;72(3): 428.
- 9-Hardy M, Montgomery W. Osteoplastic frontal sinusotomy: an analysis of 250 operations. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 1976;85(4):523-532.
- 10-Anderson P, Sindwani R. Safety and Efficacy of the Endoscopic Modified Lothrop Procedure. *Laryngoscope*, 2009;119: 1828.
- 11-Weber R, Draf W, Keerl R et al. Osteoplastic Frontal Sinus Surgery with Fat Obliteration. *Laryngoscope*, 2000;110: 1037.
- 12-Kennedy DW, Josephson JS, Zinreich SJ et al. Endoscopic sinus surgery for mucoceles: a viable alternative. *Laryngoscope*, 1989;99: 885.
- 13-Draf W, Weber R. Endonasal pansinus operation in chronic sinusitis. Indication and operation technique. *Am J Otolaryngol*, 1993;14: 394-398.
- 14-Draf W. The frontal sinus. *Scott's Brown Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery*, 7th edition. Edward Arnold Publishers Ltd; 2008
- 15-Friedel M, Li S, Langer PD et al. Modified Hemi-Lothrop Procedure for Supraorbital Ethmoid Lesion Access. *Laryngoscope*, 2012;122: 443-444.