

Mucocelos fronto-etmoidais: *Pearls & pitfalls* na abordagem terapêutica

Fronto-ethmoidal mucoceles: Treatment pearls & pitfalls

António Fontes Lima • Filipa Carvalho Moreira • Daniel Miranda • Diana Pinto Silva • Isabel Costa • Luís Dias

RESUMO

Objetivo: descrever e discutir a abordagem de uma série hospitalar de mucocelos fronto-etmoidais tratados por ORL no Hospital de Braga entre os anos 2012 e 2017.

Desenho do estudo: estudo observacional descritivo

Metodologia e métodos: análise retrospectiva de uma série de casos de mucocelos fronto-etmoidais.

Resultados: A população foi composta por 18 pacientes. A maioria foi do sexo masculino, com idade média de 47 anos. A queixa mais frequente foi a tumefação peri-orbitária (frontal ou do canto interno do olho). 20% tinha história de traumatismo maxilo-facial major prévio, e outros 20% história de cirurgia nasal prévia. A maioria foi tratada por cirurgia endoscópica nasossinusal. Como complicação major registou-se fístula de líquido num doente tratado por via externa. O tempo médio de follow-up foi de 46 meses, sem registo de recidivas.

Conclusão e discussão: os mucocelos fronto-etmoidais com erosão óssea e efeito de massa orbitária e/ou cerebral podem ser tratados por vias endoscópicas, externas ou combinadas, sendo a abordagem dependente, entre outros fatores, da localização exata, da existência de fatores de risco e das morbidades associadas a cada uma. Por esse motivo, o tratamento desta entidade permanece um desafio para o cirurgião.

Palavras-chave: mucocelos dos seios perinasais, abordagem externa, cirurgia endoscópica nasossinusal.

ABSTRACT

Objective: description and discussion of the management of fronto-ethmoidal mucoceles treated in the ENT department of Hospital de Braga between 2012 and 2017.

Study design: descriptive observational study

Material and methods: retrospective analysis of a case series of fronto-ethmoidal mucoceles.

Results: the population consisted of 18 patients. The majority were male, with mean age of 47 years old. The most common complaint was periorbital swelling (frontal or inner cantus). 20% had history of major maxillo-facial trauma, and other 20% had history of nasal surgery. Most of the patients were treated by endoscopic sinus surgery. A cerebrospinal fluid leak was registered in a patient treated by an external approach. The mean follow-up was of 46 months, with no relapses.

Conclusion and discussion: fronto-ethmoidal mucoceles with bone erosion and orbital or cerebral mass effect can be treated by endoscopic, external or combined approach. The choice between the different techniques depends on the exact location, existence of risk factors and associated morbidities. Given that, the treatment of this entity is still a challenge for the ENT surgeon.

Keywords: paranasal mucoceles; external approach; endoscopic sinus surgery.

INTRODUÇÃO

Os mucocelos dos seios perinasais (SPN) são lesões benignas, pseudo-quísticas e expansivas formadas por epitélio pseudo-estratificado ciliado que reveste uma cavidade contendo muco.¹

Os mucocelos podem afetar qualquer um dos SPN, sendo a localização mais comum a nível da região fronto-etmoidal. Tendo em conta o carácter expansivo dos mucocelos, com o aumento progressivo do seu tamanho, estes podem condicionar remodelação e erosão óssea, o que predispõe à invasão de territórios anatómicos adjacentes, nomeadamente a órbita e base do crânio.¹ Quando não tratados, podem causar, por efeito de massa, múltiplas complicações orbitárias, desde limitação dos movimentos oculares, proptose, perda da acuidade visual, até celulite orbitária, e também intracranianas, como fístulas de líquido cefalo-raquidiano (LCR), meningite e abscessos. O seu diagnóstico é sugerido pelos achados clínicos, endoscópicos e imagiológicos, havendo, neste caso, indicação para a realização de tomografia

António Fontes Lima

Interno de Formação Específica de Otorrinolaringologia no Hospital de Braga

Filipa Carvalho Moreira

Assistente Hospitalar de Otorrinolaringologia no Hospital de Braga

Daniel Miranda

Assistente Hospitalar de Otorrinolaringologia no Hospital de Braga

Diana Pinto Silva

Interno de Formação Específica de Otorrinolaringologia no Hospital de Braga

Isabel Costa

Interno de Formação Específica de Otorrinolaringologia no Hospital de Braga

Luís Dias

Diretor do Serviço de Otorrinolaringologia no Hospital de Braga

Correspondência:

António Fontes Lima
antoniofonteslima24@gmail.com

Artigo recebido a 4 de Julho de 2018. Aceite para publicação a 5 de Fevereiro de 2019.

computorizada (TC) e ressonância magnética dos SPN, tendo estes exames uma função complementar e sinérgica.^{2,3} A TC possibilita a visualização da lesão, avaliação da sua extensão e erosão óssea associada.² Por outro lado, a RM, apesar do menor detalhe ósseo, é o método de escolha para avaliação da órbita, das meninges e parênquima cerebral, e ainda para distinguir o mucocelo de outras lesões, por exemplo, tumores dos SPN, baseando-se nas diferentes intensidades de sinal após administração de contraste.³ Assim sendo, ambos são importantes para uma adequada planificação do tratamento subsequente.^{2,3}

O tratamento destas lesões é cirúrgico, sendo a via de abordagem dependente do local e extensão da lesão, assim como da experiência do cirurgião. Não obstante a necessidade de uma abordagem externa/combinada, que continua a ter indicações no presente, a marsupialização por cirurgia endoscópica nasossinusal (CENS), apresentada em 1989 por Kennedy, é uma opção segura e cada vez mais aceite para o tratamento desta patologia.^{4,5} A neuro-navegação intra-operatória tem-se mostrado uma ferramenta útil para ultrapassar antigas barreiras da cirurgia endoscópica.⁶ Existem até, atualmente, autores que defendem as técnicas endoscópicas mesmo para mucocelos gigantes, com erosão óssea extensa e com localizações consideradas, até há pouco tempo, inacessíveis por esta via.^{4,7}

O objetivo deste trabalho é a avaliação epidemiológica dos casos de mucocelos fronto-etmoidais tratados no Hospital de Braga, a sua abordagem diagnóstica e terapêutica.

MÉTODOS E METODOLOGIA

Este estudo consistiu na revisão retrospectiva dos casos de mucocelos fronto-orbitários tratados no Hospital de

Braga no período compreendido entre Janeiro de 2012 e Dezembro de 2017. As variáveis avaliadas foram: idade ao diagnóstico, sexo, clínica à apresentação, fatores de risco (antecedentes de rinossinite crónica sem/ com polipose nasal, cirurgia endoscópica nasossinusal, traumatismo maxilo-facial major), erosão óssea associada, tipo de abordagem (endoscópica, externa ou combinada), existência de recidiva e duração do *follow-up*. Os resultados são apresentados na tabela 1.

Resultados e análise de dados

Este estudo incluiu 18 pacientes. 66,7% (N=12) eram do sexo masculino. A idade média à apresentação foi de 47 anos (47 ± 18,48 anos), tendo variado entre 31 e 77 anos.

O sintoma mais frequente à apresentação foi a tumefação periorbitária (supra-ciliar ou do canto interno do olho), em 38% dos pacientes; a celulite orbitária, alterações visuais (diplopia) e a obstrução nasal também foram sintomas de apresentação frequentes.

Verificou-se, na nossa população, que 40% tinha algum fator de risco para mucocelo. 3 doentes (20%) tinham história de traumatismo maxilo-facial (TMF) major; outros 3 doentes tinham história de CENS prévia; apenas 1 doente tinha história de polipose nasal. Verificou-se um tempo médio de 27,7 anos entre o TMF e o diagnóstico de mucocelo. Por outro lado, verificou-se um intervalo médio de 11 anos entre a CENS e o diagnóstico. Em termos imagiológicos, verificou-se que a maioria tinha erosão da lâmina papirácea (67%), o que justifica a sintomatologia à apresentação. Em 44% dos doentes havia erosão do teto da órbita. Relativamente às tábuas externa e interna do frontal, verificou-se erosão em 39 e 22%, respetivamente.

O tratamento incluiu cirurgia em todos os doentes. A

TABELA 1

Variáveis recolhidas

		%	n
Localização	Frontal	33%	6
	Fronto-etmoidal	39%	7
	Etmoidal	28%	5
Antecedentes Pessoais	Traumatismo maxilo-facial major	17%	3
	Cirurgia Endoscópica Nasossinusal prévia	17%	3
	Polipose Nasal	6%	1
	Nenhum relevante	61%	11
Erosão óssea	Lâmina papirácea	67%	12
	Teto da órbita	44%	8
	Tábua externa do frontal	39%	7
	Tábua interna do frontal	22%	4
Abordagem cirúrgica	Endoscópica	61%	11
	Externa	33%	6
	Combinada	6%	1

TABELA 2

	Idade	Sexo	Antecedentes pessoais relevantes	Clínica de apresentação	Localização	Erosão	Abordagem	Follow-up (meses)	Recidiva
1	41	♂	TMF 20 anos antes	Tumefação supra-ciliar	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea, tábua externa do frontal	Externa	76	Não
2	31	♂	-	Tumefação palpebral superior	Frontal	Teto da órbita (expressão intra-orbitária)	Endoscópica	72	Não
3	73	♂	-	Proptose	Etmóide	Lâmina papirácea	Endoscópica	70	Não
4	74	♀	-	Proptose	Etmóide	Lâmina papirácea	Endoscópica	67	Não
5	31	♀	Cirurgia nasal 2 anos antes	Tumefação canto interno do olho	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea, teto da órbita	Endoscópica	66	Não
6	31	♂	-	Obstrução nasal	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea	Endoscópica	65	Não
7	67	♂	-	Tumefação supra-ciliar	Frontal	Tábua externa e interna do frontal	Combinada	60	Não
8	53	♀	-	Edema peri-orbitário	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea	Endoscópica	53	Não
9	61	♀	-	Edema peri-orbitário	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea, teto da órbita	Endoscópica	39	Não
10	41	♂	Cirurgia nasal 28 anos antes	Edema peri-orbitário	Frontal	Lâmina papirácea, tábua externa do seio frontal	Externa	36	Não
11	35	♂	-	Celulite orbitária	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea	Endoscópica	28	Não
12	32	♀	-	Epífora	Etmóide	Lâmina papirácea, canal naso-lacrimal	Endoscópica	26	Não
13	67	♂	-	Obstrução nasal	Etmóide	Erosão do bico do frontal e agger nasi	Endoscópica	22	Não
14	37	♂	RSCcP	Proptose, diplopia	Fronto-etmoidal	Lâmina papirácea, teto da órbita, tábua externa do frontal	Externa	18	Não
15	40	♂	Cirurgia nasal 3 anos antes	Tumefação canto interno do olho	Etmóide	Lâmina papirácea	Endoscópica	15	Não
16	56	♂	TMF 29 anos antes	Tumefação palpebral superior	Frontal	Tábua externa e interna do frontal, teto da órbita	Externa	8	Não
17	55	♂	TMF há 34 anos	Tumefação canto interno	Frontal	Tábua externa e interna do frontal, teto da órbita	Externa; reconstrução das tábuas interna e externa com cimento	7	Não
18	77	♀	-	Tumefação supra-orbitária	Frontal	Tábua externa e interna do frontal, teto da órbita	Externa; reconstrução da tábua externa com <i>CranioPlate</i>	6	Não

maioria, 61% (n=11) foi submetido a marsupialização por via endoscópica. A abordagem externa, nomeadamente cirurgia osteoplástica do seio frontal, foi utilizada em 33% dos doentes (n=6); nestas, as vias de acesso variaram entre a incisão bicoronal ou supraciliar. Num doente foi utilizada uma via combinada. A abordagem externa foi utilizada em todos os doentes com erosão da tábua externa e/ou interna do frontal, com necessidade de reconstrução. No que concerne a fatores de risco, todos os doentes que tinham história prévia de TMF foram submetidos a abordagem externa, o que se justifica pela distorção anatómica subjacente.

Como materiais de reconstrução óssea utilizou-se cimento/gentamicina; num dos casos, utilizou-se uma placa de titânio (*CranioPlate, Aesculap®*) para reconstrução da tábua externa.

Como complicação major registou-se apenas uma fistula de LCR num doente submetido a cirurgia por via externa. Esta foi corrigida no mesmo tempo cirúrgico, com recurso a substituto de dura-máter. Não houve outras complicações a reportar.

O tempo de *follow-up* variou entre 6 e 76 meses, com uma média de 46 meses. Até à data não se registaram recidivas dos casos estudados.

DISCUSSÃO

No que concerne à sua fisiopatologia, pensa-se que os mucocelos sejam causados por obstrução do padrão normal de drenagem mucociliar do SPN envolvido, em conjunto com a disrupção do epitélio de revestimento.¹ Alguns fatores podem estar na origem deste processo, nomeadamente a RSC, os TMF e as cirurgias nasais prévias.⁷ No nosso estudo, 38,9% dos pacientes tinham fatores predisponentes. Esta entidade caracteriza-se por uma evolução temporal lenta, o que é congruente com o intervalo entre o acontecimento predisponente e o aparecimento de sintomas e posterior diagnóstico.^{1,7,9} As propriedades expansivas dos mucocelos explicam a sintomatologia habitual de apresentação.^{1,10} Os mucocelos da região frontal e fronto-etmoidal manifestam-se frequentemente por alterações oftalmológicas. Nestas incluem-se: proptose, tumefacção/celulite peri-orbitária, oftalmoparésias, diplopia ou alterações da acuidade visual. Esta última pode dever-se à compressão do nervo óptico ou órbita, bem como a alterações vasculares e inflamatórias do próprio nervo. Outra complicação possível dos mucocelos desta topografia é a erosão da parede externa do seio frontal com desenvolvimento de uma tumefacção desta região, podendo mesmo levar ao desenvolvimento de fistula cutânea. A extensão intracraniana dos mucocelos pode provocar fístulas de liquor, meningite, abscesso cerebral ou empiema sub-dural, as quais não se verificaram em nenhum dos doentes estudados. Os mucocelos podem ainda permanecer assintomáticos e ser diagnosticados aquando da realização de exames imagiológicos por outras causas.^{1,8,10}

Tendo em conta o carácter expansivo destas lesões e a possibilidade de invasão das áreas anatómicas vizinhas, as mesmas devem ser abordadas cirurgicamente, de modo a prevenir complicações.⁴

No passado eram utilizadas maioritariamente abordagens externas no tratamento dos mucocelos fronto-etmoidais, nomeadamente através da trepanação do seio frontal ou cirurgia osteoplástica. Nessa altura, o mucocelo era visto como uma entidade agressiva e, portanto, toda a mucosa deveria ser removida. Embora esse conceito continue a ser defendido por alguns autores, sobretudo na literatura neurocirúrgica, sabe-se, atualmente, que a tentativa de remoção de toda a mucosa que pode estar aderente quer à dura-máter, quer à peri-órbita, pode representar um risco elevado para essas estruturas, e, por outro lado, não diminui a taxa de recidiva.⁴ Associada à maior morbidade, estas técnicas também estão associadas a deformidade estética da face.^{1,2,4-8}

Com o desenvolvimento das técnicas endoscópicas, a CENS tem assumido um papel de relevo crescente na abordagem desta patologia. Dados da literatura confirmam a eficácia da CENS na abordagem terapêutica dos mucocelos dos SPN, com baixa morbidade e taxa de recorrência.^{4,11,12} A marsupialização resulta num seio funcional, arejado, e que pode ser examinado em consulta, sem necessidade de exames seriados de imagem. Além disso, não lhe tem inerente os riscos e morbidade de uma craniotomia.

Mesmo assim, as abordagens externas, e por vezes combinadas continuam, em determinados casos, a ser necessárias. A escolha depende, entre outros fatores, da erosão óssea subjacente, da anatomia do seio frontal, da necessidade de correção de defeitos ósseos, e de se tratar, ou não, de um caso de revisão por recidiva. A experiência do cirurgião poderá e deverá condicionar a técnica escolhida.¹⁰⁻¹³

As abordagens externas, isoladas ou combinadas, estão indicadas em casos de inacessibilidade cirúrgica por via endoscópica. Alguns autores advogam a sua utilização em casos de mucocelos localizados lateralmente a nível do seio frontal, erosão extensa da tábua externa do frontal, osteoma com oclusão do óstium de drenagem, mucocelos secundários a lesões malignas dos SPN e existência de complicações intracranianas, por exemplo, empiemas subdurais.^{4,10-13} A distorção anatómica por TMF prévio, ou abordagem prévia do mucocelo por CENS são ainda indicações para utilização das vias externas. No entanto, mesmo mucocelos com algumas das características referidas têm sido tratados com abordagens endoscópicas. Chiu reportou a utilização da CENS com apoio de neuro-navegação para tratamento de 10 mucocelos frontais laterais, sem recidiva em 9 deles.⁶ *Sautter et al* reportou uma série de 57 pacientes com mucocelos com erosão da base do crânio e orbitária extensas abordados por via endoscópica com resultados favoráveis, com taxa de recidiva inferior a 2%.¹⁴

De facto, uma revisão sistemática recente, que incluiu casos desde 1960 até 2013 mostrou uma evolução no sentido da utilização cada vez mais frequente de CENS; no entanto, globalmente, em 65,9% dos casos reportados nesse trabalho foi utilizada uma abordagem externa.⁷

No nosso estudo não verificamos qualquer recidiva. No entanto, o tempo de *follow-up* é ainda muito curto para alguns casos. Na literatura, a taxa de recidiva é globalmente inferior para as abordagens endoscópicas (varia entre 0,9 a 2,2% dos casos), relativamente às abordagens externas/ combinadas, cuja taxa, na literatura, chega até aos 11%.^{7,10-13} Todavia, a comparação entre ambas as técnicas é difícil, pois muitas vezes a abordagem é condicionada por outras características do mucocelo, que vão, per se, determinar as taxas de recorrência.

Além disso, dado a natureza lentamente progressiva desta entidade, é necessário um seguimento a longo prazo dos pacientes operados uma vez que estes podem recidivar mesmo após vários anos da intervenção cirúrgica.⁵

CONCLUSÃO

Os mucocelos dos SPN, apesar de serem lesões benignas, apresentam um carácter lentamente expansivo com potencial de invasão de estruturas anatómicas vizinhas. Como em qualquer tratamento cirúrgico, é preciso encontrar o equilíbrio entre eficácia e efeitos adversos. Apesar da progressivamente maior aplicabilidade da CENS, as abordagens externas continuam a ter indicação para tratamento desta patologia. Erosão extensa das paredes do frontal com necessidade de reconstrução, TMF ou CENS prévios e mucocelos frontais laterais podem ainda ser indicação para as vias externas.

Protecção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estavam de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos responsáveis da Comissão de Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Confidencialidade dos dados

Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de doentes.

Conflito de interesses

Os autores declaram não ter nenhum conflito de interesses relativamente ao presente artigo.

Fontes de financiamento

Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo.

Referências bibliográficas:

- 1 – Scangas GA, Gudis DA, Kennedy DW. The Natural History and Clinical Characteristics of Paranasal Sinus Mucocoeles: a Clinical Review. *Int Forum Allergy Rhinol.* 2013 Sep;3(9):712-7.
- 2 – Lee KC, Lee NH. Comparison of Clinical Characteristics Between Primary and Secondary Paranasal Mucocoeles. *Yonsei Med J.* 2010 Sep;51(5):735-9.
- 3 – Tsitouridis I, Michaelides M, Bintoudi A, Kyriakou V. Frontoethmoidal Mucocoeles: CT and MRI Evaluation. *Neuroradiol J.* 2007 Oct 31;20(5):586-96.
- 4 – Stokken J, Wali E, Woodard T, Recinos PF, Sindwani R. Considerations in the Management of Giant Frontal Mucocoeles with Significant Intracranial Extension: A Systematic Review. *Am J Rhinol Allergy.* 2016 Jul;30(4):301-5.
- 5 – Har-El G. Endoscopic Management of 108 Sinus Mucocoeles. *The Laryngoscope.* 2001 Dec;111(12):2131-4.
- 6 – Chiu AG, Vaughan WC. Management of the lateral frontal sinus lesion and the supraorbital cell mucocoele. *Am J Rhinol Allergy.* 2004 Mar-Apr;18(2):83-6.
- 7 – Courson AM, Stankiewicz JA, Lal D. Contemporary Management of Frontal Sinus Mucocoeles: A Meta-Analysis. *Laryngoscope.* 2014 Feb;124(2):378-86.
- 8 – Lee TJ, Li SP, Fu CH, Huang CC, et al. Extensive Paranasal Sinuses Mucocoeles: a 15-year Review of 82 Cases. *Am Journal Otolaryngol.* 2009 Jul-Aug;30(4):234-8.
- 9 – Fu, CH; Chang, KP; Lee, TJ; The Difference in Anatomical and Invasive Characteristics Between Primary and Secondary Paranasal Sinus Mucocoeles. *Otolaryngol Head and Neck Surg.* 2007 Apr;136(4):621-5.
- 10 – Lund, VJ. Mucocoeles. In Cleesen, M. (Ed). *Scott-Brown's Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery.* 7ª Edição. 2009. 2009. Cap. 119. p. 1531-1538.
- 11 – Har-El, G, Balwally, AN, Lucente, FE. Sinus mucocoeles: is marsupialization enough? *Otolaryngol Head and Neck Surg.* 1997 Dec;117(6):633-40.
- 12 – Nazar R, Naser A, Pardo J, Fulla J, Rodríguez-Jorge J, Delano PH. Endoscopic Management of Paranasal Sinus Mucocoeles: Experience With 46 Patients. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2011 Sep-Oct;62(5):363-6.
- 13 – Conboy, PJ, Jones, NS. The Place of Endoscopic Sinus Surgery in the Treatment of Paranasal Sinus Mucocoeles. *Clin Otolaryngol Allied Sci.* 2003 Jun;28(3):207-10.
- 14 – Sautter NB, Citardi MJ, Perry J, Batra PS. Paranasal sinus mucocoeles with skull-base and/or orbital erosion: is the endoscopic approach sufficient? *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008 Oct;139(4):570-4.