

Papiloma Invertido Nasossinusal com Malignização: A Propósito de um Caso Clínico

Sinonasal Inverted Papilloma with Malignancy: A Case Report

Cláudia Paulo¹, Cristina Caroça²

Autor Correspondente:

Cláudia Paulo [claudia.paulo1@gmail.com]
Avenida 5 de outubro, nº 263, 1º esquerdo, 1600-034 Lisboa, Portugal

RESUMO

O papiloma invertido é uma neoplasia benigna do epitélio nasossinusal caracterizado pela sua capacidade de invasão local, elevadas taxas de recorrência e risco de malignidade. Apresenta-se o caso de um doente do sexo masculino, 37 anos, com história de cirurgias nasais prévias, que se apresentava com sintomas de obstrução nasal e sensação de corpo estranho de evolução prolongada. Foi realizada cirurgia endoscópica nasal e a análise histopatológica das amostras revelou um padrão de papiloma invertido com carcinoma *in situ*. É discutido o diagnóstico diferencial desta patologia, bem como a sua relação com a malignidade e tratamento da mesma.

PALAVRAS-CHAVE: Papiloma Invertido; Neoplasias dos Seios Paranasais

ABSTRACT

Inverted papilloma is a benign neoplasm of the sinonasal epithelium characterized by its capacity of local invasion, high recurrence rates and malignancy risk. We present the case of a 37-year-old male patient, with history of previous nasal surgeries, presenting with symptoms of nasal obstruction and foreign body sensation of prolonged evolution. It was performed endoscopic nasal surgery and the histopathological analysis revealed an inverted papilloma pattern with carcinoma in situ. We discuss the differential diagnosis of this pathology, as well as its malignancy relation and treatment.

KEYWORDS: Papilloma, Inverted; Paranasal Sinus Neoplasms

1. Aluna do Mestrado Integrado em Medicina, NOVA Medical School, Lisboa, Portugal; Hospital CUF Infante Santo, Lisboa, Portugal.

2. Serviço de Otorrinolaringologia, Hospital CUF Infante Santo, Lisboa, Portugal; NOVA Medical School, Lisboa, Portugal.

Recebido: 10/11/2017 - Aceite: 11/06/2018

INTRODUÇÃO

O papiloma invertido é uma neoplasia benigna com origem no epitélio nasossinusal (schneideriano), que se caracteriza pelo crescimento endofítico na mucosa.¹ É uma patologia rara, representando 0,5% - 4% dos tumores das fossas nasais; apresenta um pico entre a quinta e sexta décadas de vida e predomínio no sexo masculino, numa razão de 3:1. A sua etiologia é desconhecida, porém têm sido implicados fatores como a infeção por vírus do papiloma humano (HPV) (serotipos 6, 11, 16 e 18), alergia ou inflamação crónica.^{2,3} Origina-se mais frequentemente na parede nasal lateral ou seio maxilar, condicionando sintomas de obstrução nasal unilateral, rinorreia mucopurulenta ou, mais raramente, epistaxis, hiposmia/ anosmia, dor e deformação facial. Apesar de ser uma entidade benigna, a capacidade de destruição óssea e invasão local, as elevadas taxas de recorrência (5% - 30%), e o risco de malignidade (5% - 15%), conferem-lhe uma importância clínica particular.^{1,3}

CASO CLÍNICO

Apresenta-se o caso de um doente do sexo masculino, com 37 anos de idade, que recorre à consulta de Otorrinolaringologia por sensação de corpo estranho e obstrução nasal. Revela antecedentes pessoais de alergia aos ácaros, pólenes e lactose; fumador de canábis, (1-2 cigarros/dia), desde há 7 anos. Sem antecedentes familiares relevantes.

O doente refere história de massa na fossa nasal direita (FND) há cerca de 28 anos associada a obstrução nasal unilateral, tendo, então, sido submetido a cirurgia para excisão da lesão e reintervencionado cerca de 3 anos depois, por recorrência da massa e da sintomatologia. Não dispõe de outras informações, nomeadamente o estudo anatomopatológico da peça cirúrgica.

Manteve-se sem terapêutica ou vigilância até há cerca de 2 anos, altura em que recorreu à consulta de Otorrinolaringologia por reincidência das queixas de sensação de corpo estranho na FND e obstrução nasal bilateral (inicialmente unilateral direita), com cerca de 15 anos de evolução. Estas queixas agravavam durante a noite e melhoravam com o uso de descongestionantes tópicos, acompanhando-se por rinorreia mucopurulenta posterior e anterior, anosmia, alterações do paladar, alargamento da pirâmide nasal e roncopia. Negava dor local, cefaleias, epistaxis, sinusites recorrentes, alterações visuais ou neurológicas.

À observação, por nasofibroscopia verificou-se a existência de uma massa polipoide extensa na FND, de origem difícil de individualizar, mas aparentemente prove-

niente do meato médio. Foi medicado com claritromicina 500 mg/dia por 20 dias, deflazacorte 60 mg/dia por 5 dias e desmame por mais 15 dias, fluticasona 200 µg/dia e montelucaste 10 mg/dia, tendo notado franca melhoria dos sintomas. Na tomografia computadorizada (TC) dos seios perinasais (Fig. 1) foram descritos “aspectos de grosseira” polipose nasossinusal, com preenchimento dos meatos médio e inferior direitos em contiguidade com o antro maxilar direito; moderados aspectos obstructivos das células sinusais perinasais”. Manteve terapêutica crónica com montelucaste 10 mg/dia, budesonido 400 µg/dia e ebastina 10 mg/dia nos períodos de agudização.

Após um período de 2 anos de ausência em consulta, por agravamento dos sintomas, realizou ressonância magnética (RM) de seios perinasais (Fig. 2) que evidenciou “procidência das lesões através da choana direita, preenchendo quase totalmente a nasofaringe”, aparentemente com uma extensão maior relativamente à TC anterior; “sem evidência de erosões ósseas ou extensão lesional às órbitas”. Foi, então, submetido a cirurgia endoscópica nasal onde se observou na FND uma massa polipoide multilobulada, de aspeto heterogéneo, superfície irregular, vascularizada e friável (Fig. 3), com difícil definição do ponto de origem, aparentemente ao nível do meato médio, que preenche toda a FND, fazendo procidência na fossa nasal contralateral. Procedeu-se à excisão por fragmentos das lesões da FND, turbinoplastia do corneto médio, permeabilização do recesso frontal e alargamento do óstio do seio maxilar com lavagem e curetagem da parede interna. Não houve intercorrências durante a cirurgia ou período pós-operatório imediato, tendo tido alta no dia seguinte.

Foi medicado em ambulatório com cefuroxime 500 mg e deflazacorte 60 mg. O exame anatomopatológico do material recolhido durante a cirurgia revelou “papiloma pavimentoso invertido” nas amostras da fossa nasal e seio maxilar e “dois fragmentos da fossa nasal com carcinoma *in situ* no epitélio de superfície, correspondentes a menos de 10% da amostra”.

Ao 11º dia de pós-operatório encontra-se bem, com melhoria da obstrução, rinorreia, olfato e paladar, estando planeado direcionar o doente para seguimento em consulta da Unidade de Decisão e Tratamento Integrado de Cancro da Cabeça e Pescoço para orientação terapêutica.

DISCUSSÃO

No caso descrito, o doente apresentava como principal sintoma a obstrução nasal com sensação de corpo

estranho de crescimento progressivo, indicando uma provável lesão ocupando espaço como causa do quadro clínico. Atendendo à anamnese, exame objetivo e exames complementares de diagnóstico, importa fazer diagnóstico diferencial entre rinossinusite crónica polipoide, pólipos antrochoanais, papiloma invertido e carcinoma nasossinusal.

A rinossinusite crónica é uma perturbação inflamatória ou infecciosa da mucosa nasal e dos seios perinasais com duração superior a 12 semanas.⁴ Apresenta uma variante polipoide que representa 20% - 33% dos casos e cujo diagnóstico implica a documentação de pólipos nasais (pela observação ou exames de imagem), múltiplos e bilaterais. A sua elevada prevalência na população (7% - 27%), apresentação clínica típica de obstrução nasal com rinorreia mucopurulenta, presença de hiposmia/anosmia e antecedentes pessoais de alergias colocam-na como uma hipótese a ter em conta. Porém, a unilateralidade da lesão, obriga a considerar como mais prováveis outras patologias.^{4,5}

Os pólipos antrochoanais (de Killian) são lesões benignas com origem no seio/antro maxilar que se prolongam para a choana. É habitualmente uma lesão única, unilateral, associada a recorrência, com maior prevalência no sexo masculino (70%), em crianças e adultos jovens, representando 4% - 6% dos pólipos nasais na população geral. Quase todos os doentes se apresentam com obstrução nasal unilateral (ou bilateral quando a lesão toma grandes dimensões), sendo também frequentes a rinorreia mucopurulenta e rinosinopatia.⁶ À observação, verifica-se habitualmente uma massa regular, brilhante e esbranquiçada no meato médio e cavidade nasal. O exame de imagem de eleição é a TC, onde se apresenta como uma massa homogénea que ocupa o seio maxilar e se estende até à cavidade nasal, sem erosão óssea ou expansão. Na ressonância magnética (RM) surgem como massas hipointensas em T1 e hiperintensas em T2.⁷ Assim, esta foi colocada como principal hipótese diagnóstica.

O papiloma invertido surge como segunda hipótese diagnóstica, pela sintomatologia compatível de obstrução nasal unilateral, rinorreia mucopurulenta, anosmia e deformação da pirâmide nasal, predomínio no sexo masculino e história de cirurgias prévias, apesar da idade.^{1,3} À observação, a massa é habitualmente polipoide, exofítica e vascularizada, variável na coloração, de rosada a acinzentada e na consistência, de firme a friável. Na TC é comum o *remodelling* do osso circundante pelo efeito de massa, habitualmente na parede medial do seio maxilar e lâmina papirácea e ainda erosões da base do crânio, que o doente não apresentava.² A RM pode ajudar a de-

finir melhor a lesão e invasão local.⁸

Os tumores malignos nasossinuais são na sua maioria carcinomas espinocelulares, sendo a cavidade nasal o local mais frequente (44%), seguido pelo seio maxilar (36%). É mais frequente nos homens com idades acima dos 60 anos. A sintomatologia surge nos estádios avançados da doença, ocorrendo habitualmente obstrução nasal, epistaxis e descarga nasal ou, pela invasão de estruturas adjacentes, dor e deformação faciais, proptose, alterações visuais e neurológicas. A TC e a RM caracterizam as alterações ósseas e invasão local, contudo, em estádios iniciais, as imagens podem ser sobreponíveis às de lesões benignas. Neste caso, a deformação facial levaria à suspeita de malignidade.^{9,10} Contudo, o facto de ser um tumor raro, num doente jovem, com evolução prolongada e sem envolvimento de estruturas adjacentes, torna esta hipótese pouco provável.

O diagnóstico definitivo é dado apenas pela análise histopatológica da lesão, que revelou um papiloma invertido e, dois fragmentos da cavidade nasal com carcinoma *in situ* em <10% da amostra. O surgimento do carcinoma pode ser síncrono ou metácrono com o papiloma invertido. Neste caso, poderíamos pensar no metacronismo, pela história de cirurgias prévias; contudo, a ausência da caracterização histológica de então, não nos permite identificar com certeza esta hipótese. À semelhança da causa do papiloma invertido, também o HPV tem sido implicado na transformação maligna do mesmo.¹¹ O fumo de cânabis tem sido implicado na génese de carcinomas da cabeça e pescoço, contudo, estudos mais recentes não demonstram associação entre estas variáveis.¹²

Quanto ao estadiamento, podemos classificar a lesão em estágio T4 de Krouse para o papiloma invertido e estágio O segundo a classificação TNM.^{11,13}

O tratamento do papiloma invertido, associado a carcinoma ou não, passa pela remoção cirúrgica completa do tumor (não assegurada, neste caso) e mucoperiósteo adjacente, preferivelmente por via endoscópica ou, se não acessível, por cirurgia aberta.^{2,11} A radioterapia adjuvante é habitualmente utilizada em casos de carcinoma espinocelular associado a papiloma invertido ou recessão incompleta, contudo, não é recomendada em casos de carcinoma *in situ*, sendo uma opção a discutir em reunião multidisciplinar.¹¹

A evolução prognóstica é fortemente influenciada por uma ressecção cirúrgica adequada, de modo a evitar recorrências, invasão local e malignização, sendo mandatório o seguimento regular a longo prazo.¹¹



FIGURA 1. Tomografia computadorizada dos seios perinasais - 2015 (corte coronal): lesão ocupando espaço com morfologia polipoide na FND e em contiguidade com o antro maxilar ipsilateral, condicionando obstrução do meato médio.

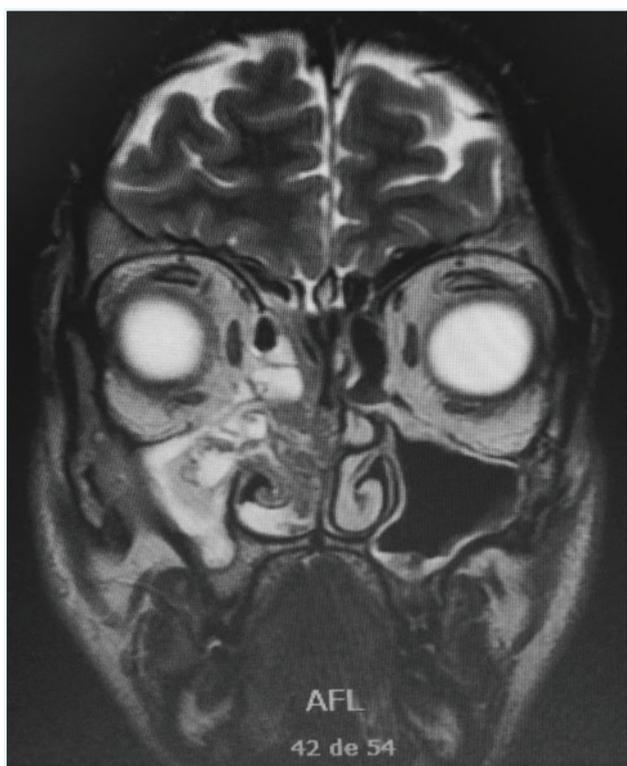


FIGURA 2. Ressonância magnética dos seios perinasais - 2017 (corte coronal): lesões confluentes na FND, hipointensas em T1 e hiperintensas em T2; sem evidência de erosões ósseas.



FIGURA 3. Endoscopia nasal direita intraoperatória: massa polipoide multilobulada, heterogênea, de superfície irregular e vascularizada, condicionando a obstrução da fossa nasal ipsilateral.

CONCLUSÃO

O caso apresentado evidencia que, apesar de raro e com diagnóstico diferencial complexo, devemos manter um elevado índice de suspeição para o diagnóstico de papiloma invertido, de modo a iniciar tratamento precocemente e evitar as complicações a ele associadas.

CONFLITOS DE INTERESSE: Os autores declaram não ter qualquer conflito de interesse na realização do presente trabalho.

FONTES DE FINANCIAMENTO: Não houve qualquer fonte de financiamento na realização do presente trabalho.

CONFIDENCIALIDADE DOS DADOS: Os autores declaram ter seguido os protocolos da sua instituição acerca da publicação dos dados de doentes.

PROTEÇÃO DE PESSOAS E ANIMAIS: Os autores declaram que os procedimentos seguidos na elaboração do presente trabalho estão em conformidade com as normas das comissões de investigação clínica e de ética, bem como da declaração de Helsínquia e da Associação Médica Mundial.

CONFLICTS OF INTEREST: The authors declare that they have no conflicts of interest.

FINANCIAL SUPPORT: This work has not received any contribution, grant or scholarship.

CONFIDENTIALITY OF DATA: The authors declare that they have followed the protocols of their work center on the publication of data from patients.

PROTECTION OF HUMAN AND ANIMAL SUBJECTS: The authors declare that the procedures followed were in accordance with the regulations of the relevant clinical research ethics committee and with those of the Code of Ethics of the World Medical Association (Declaration of Helsinki).

REFERÊNCIAS

1. Caselhos S, Estevão R, Henriques V, Sousa A, Teles RV, Mededo A, et al. Papiloma Schneideriano Exofítico - A propósito de um caso clínico. *Rev Port Otorrinol Cir Cérvico-Facial*. 2014;52:47-50.
2. Khandekar S, Dive A, Mishra R, Upadhyaya N. Sinonasal inverted papilloma: A case report and mini review of histopathological features. *J Oral Maxillofac Pathol*. 2015;19:405.
3. Von Buchwalda C, Bradley PJ. Risks of malignancy in inverted papilloma of the nose and paranasal sinuses. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2007;15:95-98.
4. Paço L. Rinossinusites na prática clínica. Guia de diagnóstico e tratamento. Queluz: Círculo Médico; 2010.
5. Chronic rhinosinusitis: Clinical manifestations, pathophysiology, and diagnosis. UpToDate. [accessed Dec 2017] Available from: <https://www.uptodate.com/contents/chronic-rhinosinusitis-clinical-manifestations-pathophysiology-and-diagnosis>.
6. Yaman H, Yilmaz S, Karali E, Guclu E, Ozturk O. Evaluation and Management of Antrochoanal Polyps. *Clin Exp Otorhinolaryngol*. 2010;3:110-4.
7. Frosini P, Picarella G, De Campora E. Antrochoanal polyp: analysis of 200 cases. *Acta Otorhinolaryngol It*. 2009;29:21-6.
8. Ungari C, Riccardi E, Reale G, Agrillo A, Rinna C, Mitro V, et al. Management and treatment of sinonasal inverted papilloma. *Ann Stomatol*. 2015;6:87-90.
9. Tumors of the nasal cavity. UpToDate. . [accessed Dec 2017] Available from: <https://www.uptodate.com/contents/tumors-of-the-nasal-cavity>.
10. Paranasal sinus cancer. UpToDate. [accessed Dec 2017] Available from: <https://www.uptodate.com/contents/paranasal-sinus-cancer>.
11. But-Hadzic J, Jenko K, Poljak M, Kocjan BJ, Gale N, Strojjan P. Sinonasal inverted papilloma associated with squamous cell carcinoma. *Radiol Oncol*. 2011;45:267-72.
12. Berthiller J, Amy Lee Y, Boffetta P, Wei Q, Sturgis EM, Greenland S, et al. Marijuana smoking and the risk of head and neck cancer: pooled analysis in the INHANCE Consortium. *Cancer Epidemiol Biomarkers Prev*. 2009;18:1544-51.
13. National Comprehensive Cancer Network NCCN Clinical Practice Guidelines in Oncology. Staging head and Neck Cancers. Philadelphia: NCCN; 2017.