

Fungus ball mascellare: dalla diagnosi al trattamento

Maxillar fungus ball: diagnosis and treatment

M. Capelli*, C. Berardi**

*Otorinolaringoiatra A.I.O.L.P.

**Direttore U.O. ORL e chirurgia cervico-facciale Istituto Clinico Città Studi, Milano

Riassunto: Negli ultimi anni stiamo assistendo ad un progressivo aumento dell'incidenza di patologie micotiche delle quali un importante capitolo è rappresentato dalle forme a localizzazione rinosinusale. In particolare il fungus ball costituisce una patologia di relativamente frequente riscontro in ambito otorinolaringoiatrico. Descriviamo il caso di una paziente giunta alla nostra osservazione presentando un importante interessamento flogistico rinosinusale complicato da iniziale estensione ai tessuti periorbitari.

Summary: *In the last years we are assisting to a progressive increase of the incidence of fungal pathologies of which an important chapter is represented by rhinosinusal forms. Particularly the fungus ball constitutes a pathology of relatively frequent comparison for otolaryngologist. We describe the case of a patient come to our observation showing a very important flogosis of the anterior nasal section complicated by initial extension to the periorbital tissues.*

Parole Chiave: Aspergillus, fungus ball, cellulite periorbitaria, signal void

Key Words: *Aspergillus, fungus ball, periorbital cellulitis, signal void*

Introduzione

I funghi sono organismi eucarioti in grado, in alcuni casi, di determinare infezioni, reazioni allergiche o di produrre tossine ad azione cancerogena e teratogena (ad esempio le aflatoossine, la sterigmatocistina e l'acido penicillico).

Aggrediscono il nostro organismo localizzandosi a diversi livelli di profondità. Esistono infatti micosi superficiali che interessano gli annessi cutanei e lo strato superficiale dell'epidermide e forme profonde che spesso comportano una diffusione sistemica, specie nei pazienti immunodepressi.

Un capitolo decisamente significativo della patologia micotica è rappresentato dalle infezioni nei distretti di interesse otorinolaringoiatrico ed in particolare quello rinosinusale. Il primo caso di aspergilloso nasale venne descritto da Schubert nel 1885. Mentre nel 1972 Ketch eseguiva la prima review della letteratura mondiale contando 98 casi di micosi nei distretti cervico-facciali.⁽⁶⁾

Con l'aumento del numero di pazienti immunodepressi (per cause iatrogene o per patologie come AIDS) cui abbiamo assistito negli ultimi decenni si è registrato consensualmente un incremento della incidenza di micosi anche a carico del distretto rinosinusale. A questo aumento ha contribuito anche il notevole miglioramento delle tecniche di imaging che ha permesso una diagnosi sempre più fine e precoce.⁽⁶⁾

Stammlinger indica che presso la clinica ORL dell'Università di Graz circa il 10% dei soggetti sottoposti a trattamento chirurgico a carico dei seni paranasali presenta una eziologia micotica. In realtà data la frequente asintomaticità di tali infezioni il numero di casi totali nella popolazione potrebbe risultare molto più elevato.⁽⁶⁾

Essendo le micosi rinosinusalì un grande insieme di patologie molto diverse fra loro sia sotto l'aspetto eziopatogenetico che sotto il profilo clinico e prognostico, nel febbraio 2008 la Società Internazionale di Micologia Umana ed Animale si è riunita al fine di classificarne correttamente le diverse forme. Innanzitutto si è provveduto a distinguere le forme non invasive da quelle invasive, quindi a separare le prime in infezioni saprofitiche, Fungus Ball (FB) e rinosinusite allergica fungina e le seconde in granulomatosi invasive, croniche invasive e acute invasive (fulminanti).⁽¹⁾

Il FB rappresenta una importante e relativamente frequente forma di micosi non invasiva a prevalente localizzazione mascellare altrimenti conosciuto come mycetoma o aspergilloma (termini ormai ritenuti non adeguati). È stato riscontrato più frequentemente nelle donne di media età o di età avanzata contrariamente alle forme invasive che sono più diffuse nei maschi.⁽¹⁾

Il quadro clinico è inizialmente molto sfumato e la diagnosi viene effettuata incidentalmente durante l'esecuzione di accertamenti per altre problematiche. In fase più avanzata il paziente potrebbe riferire cacosmia (sensazione di odore di muffa) sino a sviluppare un quadro clinico tipicamente rinosinusitico (ostruzione nasale, rinorrea purulenta, algie facciali particolarmente localizzate alla regione mascellare) In alcuni casi una concomitante infezione batterica riacutizzata è in grado di peggiorare notevolmente il quadro clinico determinando anche complicanze extrasinusalì.⁽⁷⁾

Descriviamo il caso di una paziente affetta da fungus ball mascellare e presentatasi alla nostra attenzione con importante edema periorbitario sinistro e dolore facciale non responsivo ai farmaci.

Caso clinico

R.C., donna di 53 anni, si presenta nel mese di marzo alla nostra attenzione lamentando ostruzione nasale sinistra e importante algia mascellare omolaterale. Porta in visione una TC senza mdc con proiezioni coronale ed assiale eseguita circa 6 mesi prima per ostruzione nasale sinistra persistente. Era stata posta allora diagnosi di pansinusite cro-

nica monolaterale sinistra ma non erano stati eseguiti ulteriori approfondimenti né era stato pianificato un adeguato programma terapeutico. Presa visione della TC abbiamo notato la presenza di un opacamento totale diffuso a tutto il comparto anteriore di sinistra e la presenza di piccoli spot iperintensi intra-mascellari. Abbiamo eseguito una decongestione delle fosse nasali con vasocostrittori e anestetici e quindi una endoscopia che ha mostrato una notevole rinorrea purulenta a provenienza dal COM. La paziente presentava un importante quadro di edema periorbitario che riduceva la capacità di apertura palpebrale. Abbiamo pertanto ricoverato la paziente ed eseguito una terapia antibiotica ev con Ceftriaxone e Clindamicina sottoponendola a ripetute medicazioni endoscopiche. La paziente essendo affetta da glaucoma non ha eseguito terapia steroidea. Abbiamo eseguito inoltre RMN massiccio facciale con mdc che ha evidenziato una assenza di segnale in pesatura T2 a livello del seno mascellare sinistro ed una presa di contrasto periferica al seno stesso, a livello orbitario era presente invece un edema flogistico pre-settale. L'importante stato flogistico e la disventilazione relativa portava inoltre al ristagno di secrezioni che apparivano iperintense in T2 sia a livello etmoidale che frontale. La diagnosi è stata di fungus ball mascellare sinistro, concomitante riacutizzazione di rinosinusite cronica del comparto anteriore e cellulite periorbitaria omolaterale.

La paziente ha mostrato un miglioramento delle condizioni locali dopo alcuni giorni di medicazioni e terapia antibiotica. L'abbiamo quindi sottoposta a chirurgia endoscopica funzionale rinosinusalè. Abbiamo eseguito una ampia antrostomia e con supporto di ottiche angolate 45° abbiamo asportato in toto la massa fungina. Abbiamo eseguito quindi una apertura dell'etmoide anteriore e una asportazione totale del processo uncinato con ristabilita pervietà del recesso frontale. L'intervento è stato completato con prelievi multipli della mucosa sinusale e della massa fungina per esame istologico. Abbiamo anche eseguito prelievi per esame colturale. La paziente dopo 2 giorni è stata stamponata e dimessa senza complicanze post-

operatorie. Al controllo dopo 3 mesi si presenta libera da malattia.

Discussione

La più frequente forma di micosi rinosinusale è rappresentata dal FB.⁽¹⁾ Si tratta di una forma a carattere non invasivo, risultato di una fitta conglomerazione di ife fungine all'interno di una cavità sinusale. Solitamente colpisce il seno mascellare, anche se sono noti casi di FB in altri seni paranasali o addirittura a localizzazioni multiple.⁽¹⁾

La Società Internazionale di Micologia Umana ed Animale ne ha tracciato i caratteri distintivi: evidenza radiologica di opacizzazione sinusale, presenza di materiale purulento all'interno del seno paranasale interessato, denso conglomerato di ife fungine separate dalla mucosa sinusale, non predominanza di eosinofili, mucina allergica o reazioni granulomatose, non evidenza di invasione mucosale⁽¹⁾.

L'*Asperillus* rappresenta la specie fungina maggiormente implicata nell'eziopatogenesi ed in particolare l'*A. Fumigatus* e l'*A. Flavus*. Tuttavia sono stati descritti casi a diversa eziologia come miceti appartenenti al genere *Alternaria*, *Bipolaris*, *Cladosporidium*, *Curvularia*, *Exerohilum* e *Plerophomopsis*. In considerazione di ciò è oramai ritenuto non adeguato il termine aspergilloma come equivalente di FB.⁽⁴⁾

I funghi sono molti diffusi negli ambienti che quotidianamente frequentiamo. Ad esempio li troviamo nel terreno fertile, sulla crosta del pane vecchio, sulla marmellata, su materiale organico in disfacimento o su pareti attaccate dall'umidità. Essi vengono a contatto con le mucose rinosinusalì perché introdotti durante la respirazione e trovano un ambiente favorevole alla loro crescita solo in determinate circostanze. Il buio dei seni paranasali, il glucosio e il basso pH che si sviluppa nelle flogosi croniche sinusali rappresentano ad esempio per l'*Aspergillus* un substrato indispensabile.⁽⁶⁾

Possiamo pertanto asserire che la rinosinusite cronica rappresenta una condizione ideale per la sovrinfezione e la crescita micotica. A questo pare possano aggiungersi altri fattori favorevoli la cre-

scita fungina come l'ossido di zinco, il ferro, il potassio, il calcio ed il magnesio, il fosforo ed i solfuri che parrebbero relazionare l'insorgenza del FB con alcuni trattamenti endodontici o di implantologia. Questi metalli infatti utilizzati in odontoiatria migrerebbero all'interno del seno mascellare attraverso il canale dentario e li verrebbero sfruttati del fungo per svolgere alcune importanti funzioni metaboliche.⁽³⁾

Ecco perché osservando una TC possiamo riscontrare tracce marcatamente iperintense all'interno del seno affetto da FB: si tratta dei metalli verso cui il fungo presenta grande affinità e che capta avidamente. Il primo aspetto distintivo radiologico sarà pertanto la presenza di spot iperintensi all'interno di un seno occupato da materiale radiopaco. La conferma alla nostra ipotesi diagnostica ci verrà fornita dalla RMN che rappresenta a nostro avviso un esame indispensabile per l'inquadramento di questi pazienti e per la programmazione chirurgica. Saranno la presenza di signal void in T2 e da una eventuale presa di contrasto periferica al seno ad identificare la presenza di un FB.^(2, 5, 7)

Nei casi come quello da noi descritto, in cui assistiamo allo sviluppo di una complicanza orbitaria, consigliamo di eseguire la RMN del massiccio facciale con mdc non solo per giungere ad una diagnosi sostanzialmente certa ed escludere processi neoformativi monolaterali, ma anche per valutare l'estensione della flogosi a livello dei tessuti orbitari.⁽⁷⁾ Sappiamo infatti che se una cellulite resta confinata alla regione presettale (I grado sec. Classificazione di Chandler) avremo ottime probabilità di risolvere il quadro con una semplice terapia antibiotica per os, ma se l'estensione del processo infettivo interessa gli spazi retrosettali (II grado sec. Classificazione di Chandler) allora il paziente dovrebbe necessitare di un monitoraggio più stretto circa l'evoluzione dei sintomi oculari. Infatti si deve procedere ad una soluzione chirurgica se il quadro resta invariato dopo oltre 48 ore di terapia antibiotica ev.

Un altro aspetto fondamentale nell'approccio diagnostico al FB è l'esecuzione intraoperatoria di

biopsie multiple della mucosa sinusale al fine di valutare in primis l'assenza di invasività (sono descritti infatti alcuni rari casi di evoluzione del FB verso forme invasive) e, cosa non meno importante, la assenza di una degenerazione maligna a carico della mucosa sinusale sottostante. Diversi sono infatti i casi di carcinomi associati a sovrinfezione fungina nei seni paranasali.⁽⁶⁾ Sempre sotto l'aspetto diagnostico ricordiamo quanto sia importante anche l'esecuzione di un esame istologico sulla massa fungina che permette di ovviare al problema degli esami colturali spesso non in grado di definire l'eziologia micotica. Possono invece essere riscontrati batteri che condividono con il fungo la sede di infezione.⁽⁷⁾ Essi sono responsabili della rinorrea purulenta che spesso si associa alla infezione micotica e di alcune potenziali complicanze settiche come nel caso della nostra paziente in cui si è riscontrato in interessamento dei tessuti pericoculari.

La presenza di un habitus immunodepressivo (condizione talvolta associata alla micosi rinosinusale) aggrava l'aspetto prognostico e favorisce una più probabile diffusione del processo infettivo. Ma non sono solo i batteri a creare possibili complicanze. Anche l'aspergillus, ad esempio, può diffondersi all'interno dell'orbita provocando cecità o causare osteomielite, meningiti fungine o aneurismi micotici.⁽⁶⁾

La terapia in caso di FB è chirurgica.^(2, 3, 7) Nel caso da noi descritto, trattandosi di un FB mascellare, abbiamo eseguito un trattamento chirurgico endoscopico funzionale eseguendo una ampia antrostomia sinistra e provvedendo alla meticolosa rimozione di tutti i residui fungini dal seno stesso. Questa azione è stata consentita dall'uso di ottiche angolate 45°. Una volta accertata la completa bonifica del seno mascellare e dopo aver disposto per gli esami istologici e colturali, essendo presente una concomitante rinosinusite cronica anteriore abbiamo proceduto con l'apertura della bulla etmoidale e con la totalizzazione del processo uncinato. In questo modo abbiamo garantito una buona ventilazione del comparto anteriore.

L'alternativa all'approccio endoscopico per il

trattamento del FB mascellare è rappresentato dall'intervento di Caldwell-Luc a cui nella nostra esperienza non abbiamo mai ricorso, così come al trocar, essendo sempre stati in grado di dominare interamente il seno mascellare per via endoscopica.

Una chirurgia endoscopica funzionale tradizionale viene utilizzata con successo anche nel trattamento dei rari FB a localizzazione etmoidale e sfenoidale, mentre più difficile risulta trattare il seno frontale con questo approccio. Se esiste il sospetto che non tutta la massa fungine sia stata asportata allora si dovrà ricorrere ad un approccio esterno.

Abbiamo rimosso i tamponi nasali in seconda giornata e dimesso la paziente subito dopo in buone condizioni generali. Essa non presentava più edema a livello periorbitario e la motilità palpebrale era completamente ristabilita.

Abbiamo raccomandato di eseguire lavaggi nasali abbondanti ed abbiamo sottoposto la paziente a medicazione post-operatoria a distanza di 7 giorni e quindi settimanalmente per 1 mese.

Attualmente la paziente presenta corretti esiti chirurgici, buona ventilazione della fossa nasale sinistra con ampia pervietà dell'antrostomia e si presenta libera da malattia.

Conclusioni

Il Fungus Ball rappresenta la più diffusa forma di micosi rinosinusale. Appartiene alla categoria delle micosi non invasive pur essendo in rari casi verificatasi una evoluzione verso la forma invasiva. Per questo e per le sue possibili complicanze infettive, tale patologia deve essere trattata in maniera efficace e decisa. La chirurgia endoscopica rinosinusale rappresenta oggi il trattamento di scelta, pur non essendo l'unica possibilità.

Ricevuto: 13.06.2013

Accettato: 01.07.2013

Corrispondenza: Dott. Marco Capelli

Via Vittorio Emanuele, 39 - Codogno (LO)

Tel. 331-3386696; E-mail: ipponatte78@tiscali.it

Bibliografia

1. Chakrabarti A, Denning DW, Ferguson BJ, Ponikau J, Buzina W et al. - *Fungal rhinosinusitis: a categorization and definitional schema addressing current controversies*. Laryngoscope. 2009 Sep; 119(9): 1809-1818.
2. Leboime A, Berthelot JM, Allanore Y, Khalil Kallouche L, Herman P, Orcei P, Lioté F - Sinus aspergilloma in rheumatoid arthritis before or during tumor necrosis factor-alpha antagonist therapy. Arthritis - Res Ther. 2009 Nov; 11 (6): R164
3. Matjaz R, Jernej P, Mirela KR- *Sinus maxillaris mycetoma of odontogenic origin: case report*. Braz Dent J. 2004 Mar; 15(3): 248-250.
4. Padhye AA, Gutekunst RW, Smith DJ, Punithalingam E. – Maxillary sinusitis caused by pleurophomopsis lignicola - J Clin Microbiol. 1997 Aug; 35(8): 2136-2141.
5. Se Hwan Hwang, Jun Myung Kang, Jin Hee Cho, Byung Guk Kim - *What is the relationship between the localization of maxillary fungal balls and intranasal anatomic variations?* - Clin Exp Otorhinolaryngol. 2012 Dec; 5(4): 213-217.
6. Stammberger H - *Le micosi*. Chirurgia endoscopica funzionale dei seni paranasali. Ed. Torino: Centro scientifico editore; 1993 Mar; 398-427.
7. Vivanco Allende A, Coca Pelaz A, Vivanco Allende B, Llorente Pendas JL - *Hiposmia, rinorrea fetida y algias faciales por aspergilloma maxilar* - An Pediatr. 2010 Jul; 73(1): 47-50