

# Papiloma invertido nasossinusal simulando estesioneuroblastoma: um relato de caso

*Sinonasal inverted papilloma simulating estesioneuroblastoma: a case report*

Ernesto Nascimento Pozzatto<sup>1</sup>, André Felipe Monteiro Gonçalves<sup>1</sup>, Henrique Faria Ramos<sup>1</sup>, Marcos Rosa-Júnior<sup>1</sup>

## RESUMO

**Introdução:** Os tumores nasais, paranasais e da base do crânio compõem lesões raras e geralmente agressivas. A clínica comumente é inespecífica e insidiosa, tendendo a levar estes pacientes a um mau prognóstico. Neste contexto, uma vez que no seu diagnóstico e no planejamento cirúrgico tornam-se imperativos a realização da biópsia e dos exames de imagem, descrevemos um relato de caso na qual um papiloma invertido (PI) simulava nas suas imagens radiológicas um estesioneuroblastoma (neuroblastoma olfatório) (ENB), com o objetivo de contribuir no diagnóstico diferencial de ambas as doenças. **Relato de caso:** Uma mulher de 69 anos queixava-se de obstrução nasal, cefaleia frontal e proptose à esquerda, de maneira que a rinoscopia evidenciou uma lesão expansiva na fossa nasal ipsilateral. Aos exames de tomografia computadorizada (TC) e de ressonância magnética (RM), foi demonstrada uma lesão solidocística em haltere com envolvimento das fossas craniana anterior e nasal esquerda, centrada na placa cribiforme e associada a cistos periféricos intracranianos, achados clássicos de um ENB. A paciente foi submetida a frontoetmoidectomia esquerda com exérese do tumor nasal, mas a biópsia, no entanto, revelou tratar-se de um PI. **Conclusão:** Apresentamos um relato de caso de um PI na qual sua imagem simulava um ENB, tratando-se de uma manifestação atípica de uma doença rara. Espera-se, diante do exposto, que este trabalho colabore no auxílio ao diagnóstico diferencial de ambas as doenças. **Palavras-chave:** Papiloma invertido. Estesioneuroblastoma olfatório. Tomografia computadorizada. Ressonância magnética.

## ABSTRACT

**Introduction:** Nasal cavities, paranasal sinuses and skull base tumors are rare and usually aggressive lesions. The clinic is generally nonspecific and insidious, tending to lead these patients to a poor prognosis. In diagnosis and surgical planning, biopsy and imaging tests are imperative. In this context, since biopsy and imaging exams become imperative in its diagnosis and surgical planning, we describe a case report where an inverted papilloma (IP) mimicked an esthesioneuroblastoma (olfactory neuroblastoma) (ENB) in radiological images, aiming to contribute to the differential diagnosis of these two conditions. **Case report:** A 69-year-old woman complained of nasal obstruction, frontal headache and left-sided proptosis with the rhinoscopy revealing an expansive lesion in the ipsilateral nasal fossa. Computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) reviewed a solidocystic dumbbell lesion involving the anterior and left nasal fossae, centered on the cribriform plate and associated with intracranial peripheral cysts, a classic ENB findings. The patient underwent left frontoethmoidectomy with excision of the nasal tumor, but the biopsy, however, revealed an IP. **Conclusion:** We present a case report of a PI in which imaging on CT and MRI simulated an ENB, likely representing an atypical manifestation of a rare disease. It is hoped that, in light of the above, this work will aid in the differential diagnosis of both conditions.

**Keywords:** Inverted papilloma. Olfactory neuroblastoma. Computed tomography. Magnetic resonance imaging.

<sup>1</sup> Universidade Federal do Espírito Santo. Vitória/ES, Brasil.

## Correspondência:

ernestopozzatto@gmail.com

## Direitos autorais:

Copyright © 2024 Ernesto Nascimento Pozzatto, André Felipe Monteiro Gonçalves, Henrique Faria Ramos, Marcos Rosa-Júnior.

## Licença:

Este é um artigo distribuído em Acesso Aberto sob os termos da Creative Commons Atribuição 4.0 Internacional.

## Submetido:

13/10/2024

## Aprovado:

12/11/2024

## ISSN:

2446-5410

## INTRODUÇÃO

O câncer é uma das principais causas de morte prematura no mundo<sup>1</sup>. O câncer de cabeça e pescoço (CCP) é o sétimo mais comum, responsável por 5,7% das mortes por câncer<sup>2</sup>. Os tumores nasais, paranasais e da base do crânio são um subgrupo dos CCP, sendo raros e geralmente agressivos, responsáveis por até 5% dos CCP e por 1% de todos os cânceres<sup>3</sup>.

Os sintomas iniciais dos CCP são inespecíficos e mais comumente incluem obstrução nasal, epistaxe, dor facial ou rinorreia persistente. Já na doença localmente avançada há sintomas como proptose, diplopia ou neuropatia craniana, correlacionando-se com a localização e extensão da doença<sup>4</sup>.

Devido ao caráter insidioso destes sintomas, a maioria dos pacientes tendem a ser diagnosticados quando o tumor está localmente avançado ou mesmo metastático, acarretando um prognóstico ruim. Neste contexto, além da biópsia, os exames de imagem axiais, tomografia computadorizada (TC) e ressonância magnética (RM), são essenciais no diagnóstico<sup>4</sup>.

Dentre os CCP, o papiloma invertido (PI) representa até 4% de todos os tumores nasais primários, sendo geralmente de característica benigna. Sua etiologia ainda é incerta, mas suspeita-se que o tabagismo seja o principal fator de risco. A clínica é inespecífica e na endoscopia possui um aspecto típico em “framboesa”. Nos exames de imagem tende a revelar-se como uma lesão centrada no meato médio com realce em convoluções do tipo “cerebriforme”<sup>5-8</sup>.

Já o estesonoblastoma (ENB) representa cerca de 3% de todos os tumores malignos nasossinuais, e embora seja de crescimento lento, é um tumor maligno agressivo que tem propensão a infiltrar-se localmente nos seios paranasais, cérebro e órbita, com altas chances de metástase. A sua clínica, assim como para o PI, é também inespecífica<sup>9-13</sup>.

Neste contexto, uma vez que no diagnóstico e o planejamento cirúrgico dos CPP tornam-se imperativos a realização dos exames de imagem, descrevemos um relato de caso na qual um PI simulava nas suas imagens radiológicas um ENB, tendo por objetivo o de contribuímos no diagnóstico diferencial de ambas as doenças.

## RELATO DE CASO

Uma paciente de 69 anos, sexo feminino, queixava-se de obstrução nasal e cefaleia frontal há mais de 30 anos. Ao exame físico, foram identificados pólipos e proptose de olho esquerdo.

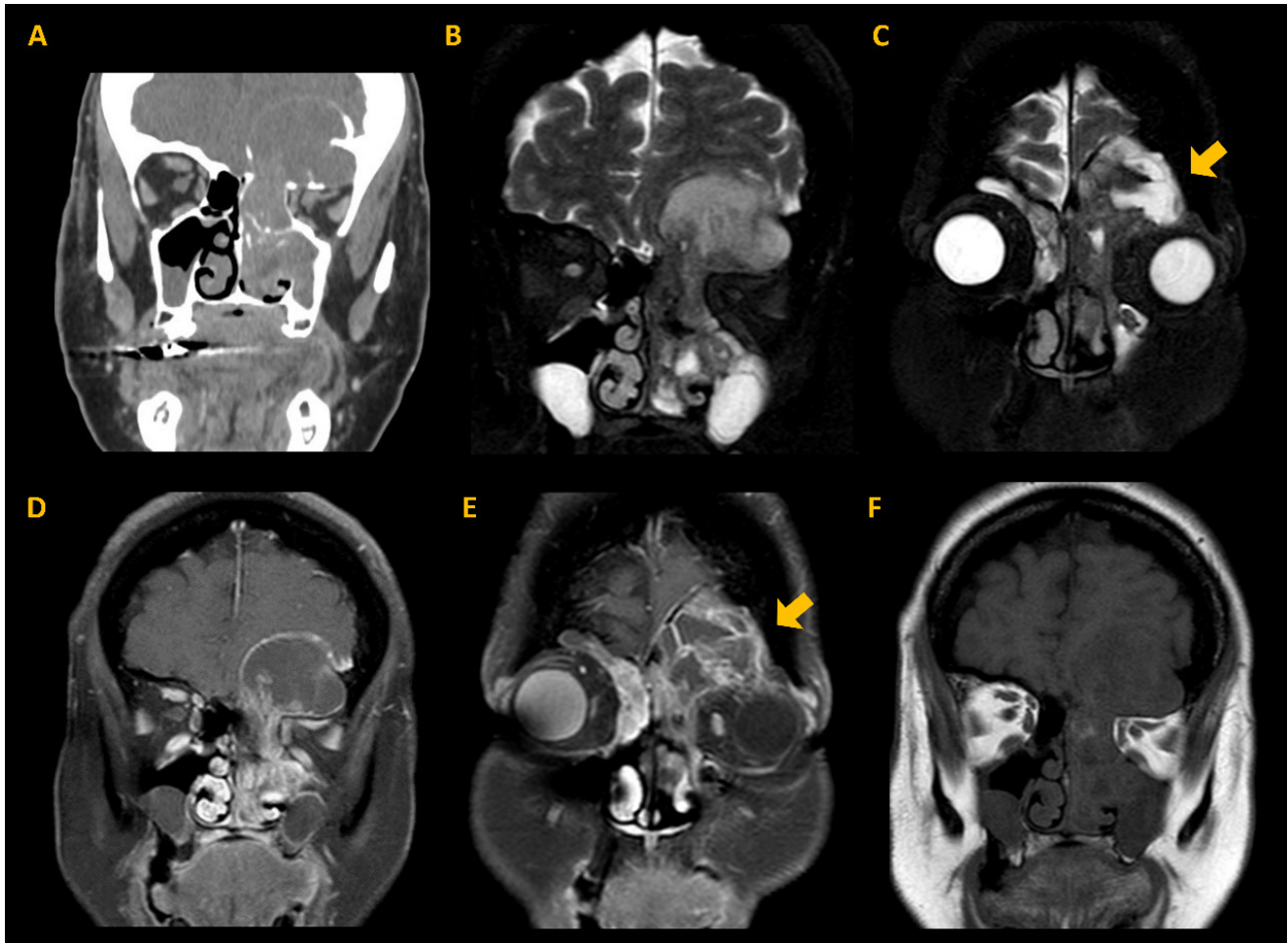
Na TC e na RM, foi revelada uma imagem heterogênea em halter com componente solidocístico, centrada na placa cribiforme esquerda, ocupando a fossa nasal e a fossa craniana anterior esquerdas, além de acometimento do nível do plano esfenoidal posteriormente, com importante efeito de massa, achados típicos de um ENB (Figura 1). A paciente foi submetida a frontoetmoidectomia esquerda com exérese do tumor nasal e correção de mucocele frontal, mas a biópsia, no entanto, revelou tratar-se de um PI.

## DISCUSSÃO

Neste trabalho, apresentamos um relato de caso de um PI, comprovado por biópsia, na qual sua imagem simulava um ENB na TC e na RM, pois tratava-se de uma lesão com forma de haltere centrada na placa cribiforme, com sua porção superior na fossa craniana anterior e a porção inferior na cavidade nasal superior associado a cistos intracranianos na interface tumor-cérebro, que são achados clássicos e bastante sugestivos do ENB.

O PI acomete mais comumente homens brancos com idade média de 53 anos<sup>5</sup>. Apesar de benigno, as três características típicas do PI são i) taxa de recorrência relativamente alta, ii) agressividade local e iii) potencial de transformação maligna (atipia, displasia, carcinoma *in situ* e carcinoma espinocelular)<sup>6</sup>. Surgem mais comumente da parede nasal lateral e tendem a envolver mais comumente os seios paranasais, os etmoidais e maxilares<sup>5,7</sup>. A clínica é de obstrução nasal inespecífica, rinorreia, cefaleia, hiposmia ou anosmia, epistaxe ou dor facial, sendo geralmente diagnosticado tardiamente (1 a 4 anos após o primeiro início dos sintomas). O diagnóstico definitivo é realizado por meio da biópsia, na qual é preciso ter cuidado com falsos positivos devido a existência conjunta com pólipos. Também é preci-

**FIGURA 1.** Sequências coronais na TC (A) e na RM ponderadas em T2 SPAIR (B e C), T1 SPIR pós-contraste (D e E), T1 sem contraste (F), demonstrando uma imagem heterogênea em haltere com componente sólido e cístico (setas), centrada na placa cribriforme esquerda, ocupando a fossa nasal esquerda e fossa craniana anterior



Fonte: Sistema de comunicação e arquivamento de imagens (*Picture Archiving and Communication System - PACS*) do Hospital Universitário Cassiano Antônio Moraes (HUCAM).

so que se exclua a sua coexistência com carcinoma (carcinoma sincrônico)<sup>5</sup>. Já os exames de imagem são essenciais para determinar a localização e a extensão do tumor para o planejamento cirúrgico. A TC com contraste pode revelar uma lesão centrada no meato médio com realce em convoluções, do tipo “cerebriforme” (sua principal característica). A hiperostose focal tem um alto valor preditivo positivo (VPP) do local de implantação do tumor (89-95%). Caso haja erosão óssea, no entanto, haverá uma probabilidade aumentada de carcinoma sincrônico<sup>5</sup>. A RM possui alto VPP e alto valor preditivo negativo (VPN) para o diagnóstico da lesão, a qual na ponderação T2 mostra-se predominantemente hiperintensa ao músculo esquelético, e nas ponderações T2 e T1 C+ FS revela seu típico pa-

drão convoluto cerebriforme (seu desaparecimento ou a presença de necrose sugerem carcinoma sincrônico)<sup>5,8</sup>. O tratamento de escolha é a ressecção cirúrgica, incluindo do periósteo, podendo ser não associado a radioterapia.

Já o ENB apresenta-se como uma lesão centrada na placa cribriforme, em forma de haltere, com sua porção superior na fossa craniana anterior e a porção inferior na cavidade nasal superior. A presença de cistos periféricos é altamente sugestiva de ENB. Desta forma, na TC sem contraste é possível notar remodelação óssea causando aumento do recesso olfatório com erosão óssea na placa cribriforme. Após a injeção do meio de contraste, há um realce homogêneo, podendo haver algumas áreas de hiporrealce caso exista necrose ou cistos periféricos.

Na RM, a ponderação T1 revela uma lesão de hipo a isossinal ao cérebro (áreas de hemorragia aparecem em hipersinal), havendo marcado realce homogêneo ao meio de contraste (áreas de necrose aparecem de maneira heterogênea). Na ponderação T2 há iso a hipersinal associada a áreas de degeneração cística. Há discreta restrição à difusão das moléculas de água<sup>9-11</sup>.

A coexistência de um PI com um ENB em uma mesma lesão (colisão tumoral) é possível. Tal condição foi retratada em apenas dois relatos de caso na literatura, no entanto, ambas as lesões não se estendem para a cavidade craniana e a biópsia, nestes casos, comprovou os dois subtipos tumorais<sup>12,13</sup>. Desta forma, é mais provável que estejamos diante de uma manifestação atípica de uma doença rara.

É preciso tomar nota, ainda, que exames de diagnóstico por imagem possuem limitações e que nem sempre haverá correlação perfeita entre a imagem e o resultado anatomopatológico.

Espera-se, diante do exposto, que este trabalho colabore no auxílio ao diagnóstico diferencial e no melhor entendimento de ambas as doenças, PI e ENB, uma vez que somente com o aumento no número dos relatos de casos descritos haverá substrato para o surgimento de consensos e diretrizes para o manejo eficaz dessas condições.

## REFERÊNCIAS

- Sung H, Ferlay J, Siegel RL, Laversanne M, Soerjomataram I, Jemal A, Bray F. Global Cancer Statistics 2020: GLOBOCAN Estimates of Incidence and Mortality Worldwide for 36 Cancers in 185 Countries. *CA Cancer J Clin*. 2021 May;71(3):209-49.
- Chow LQM. Head and Neck Cancer. *N Engl J Med*. 2020 Jan 2;382(1):60-72.
- Dutta R, Dubal PM, Svider PF, Liu JK, Baredes S, Eloy JA. Sinonasal malignancies: A population-based analysis of site-specific incidence and survival. *Laryngoscope*. 2015 Nov;125(11):2491-7.
- Thawani R, Kim MS, Arastu A, Feng Z, West MT, Taflin NF, et al. The contemporary management of cancers of the sinonasal tract in adults. *CA Cancer J Clin*. 2023 Jan;73(1):72-112.
- Lisan Q, Laccourreye O, Bonfils P. Sinonasal inverted papilloma: From diagnosis to treatment. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2016 Nov;133(5):337-41.
- Pitak-Arnnop P, Bertolini J, Dhanuthai K, Hendricks J, Hemprich A, Pausch NC. Intracranial extension of Schneiderian inverted papilloma: a case report and literature review. *Ger Med Sci*. 2012;10.
- Cohn EM. *Neuroradiology, 3rd Edition, The Requisites. Neuroophthalmology*. 2011 Jan 16;35(1):55.
- Upadhyaya IB, Rao K. Sinonasal Inverted Papilloma: A Narrative Review. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2022 Oct;74(-Suppl 2):1017-22.
- Fiani B, Quadri SA, Cathel A, Farooqui M, Ramachandran A, Siddiqi I, et al. Esthesioneuroblastoma: A Comprehensive Review of Diagnosis, Management, and Current Treatment Options. *World Neurosurg*. 2019 Jun;126:194-211.
- Dublin AB, Bobinski M. Imaging Characteristics of Olfactory Neuroblastoma (Esthesioneuroblastoma). *J Neurol Surg B Skull Base*. 2016 Feb;77(1):1-5.
- Wu K, Avila SA, Bhuyan R, Matloob A, Del Signore AG, Hadjipanayis C, et al. Orbital invasion by Esthesioneuroblastoma: a comparative case series and review of literature. *Orbit*. 2022 Feb;41(1):1-14.
- Pasquini E, Sciarretta V, Compadretti GC, Cantaroni C. A case report of inverted papilloma associated with esthesioneuroblastoma treated by endoscopic sinus surgery. *Am J Otolaryngol*. 2003 May-Jun;24(3):181-2.
- Karam SD, Jay AK, Anyanwu C, Steehler MK, Davidson B, Debrito P, et al. Pathologic Collision of Inverted Papilloma with Esthesioneuroblastoma. *Front Oncol*. 2014 Mar 14;4:1-6.

## DECLARAÇÕES

### Contribuição dos autores

Concepção: ENP, MRJ. Aquisição de financiamento: ENP, MRJ. Investigação: ENP, AFMG, MRJ. Metodologia: ENP, MRJ. Tratamento e análise de dados: ENP, MRJ. Redação: ENP, MRJ. Revisão: ENP, MRJ, AFMG, HFR. Aprovação da versão final: ENP, MRJ, AFMG, HFR. Supervisão: MRJ.

### Financiamento

O artigo contou com financiamento próprio.

### Conflito de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

### Aprovação no comitê de ética

O projeto de pesquisa foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Universidade Federal do Espírito Santo sob o parecer número CAAE 67041023.7.0000.5071 e parecer de aprovação número 5.946.407.

### Disponibilidade de dados de pesquisa e outros materiais

Dados de pesquisa e outros materiais podem ser obtidos por meio de contato com os autores.

**Editores responsáveis**

Neide Aparecida Tosato Boldrini, Ana Daniela Izoton De Sadosky, Marcelo Ramos Muniz, Renata Scarpat Careta, Eliana Bernadete Caser, Lucia Martins Diniz, Fabio Petersen Saraiva, Maria da Penha Zago Gomes, Ketty Lysie Libardi Lira Machado, Vitor Fiorin de Vasconcellos, João de Siqueira Neto, Fernando Luiz Torres Gomes.

**Endereço para correspondência**

Universidade Federal do Espírito Santo, Av. Marechal Campos, 1468, Maruípe, Vitória/ES, Brasil, CEP: 29043-900.