



Brazilian Journal of OTORHINOLARYNGOLOGY

www.bjorl.org



RELATO DE CASO

Bilateral multifocal inverted papilloma with osseous metaplasia of the sinonasal cavity^{☆,☆☆}



Papiloma invertido multifocal bilateral com metaplasia óssea da cavidade nasossinusal

Lokman Uzun^a, Seyma Ozkanli^b, M. Tayyar Kalcioğlu^{ID a,*}, Numan Kokten^a e Cigdem Kafkasli^a

^a Istanbul Medeniyet University, Medical Faculty, Department of Otorhinolaryngology, Istanbul, Turkey

^b Istanbul Medeniyet University, Medical Faculty, Department of Pathology, Istanbul, Turkey

Recebido em 29 de junho de 2016; aceito em 30 de junho de 2016

Disponível na Internet em 30 de junho de 2017

Introdução

A metaplasia é a substituição reversível de um tipo de célula diferenciada ou tecido por outro tipo de célula diferenciada madura ou tecido. A mudança de um tipo de célula para outro pode ser parte de um processo de maturação normal ou causado por um estímulo anormal.¹ O papiloma invertido é um tumor epitelial benigno composto por epitélio respiratório colunar ou ciliado bem diferenciado, que tem diferenciação escamosa variável, alta taxa de recorrência e associação com carcinoma espinocelular. Embora a

metaplasia óssea seja frequentemente descrita em pólipos do trato gastrointestinal, raramente é encontrada na região da cabeça e pescoço.^{1,2} Na região da cabeça e pescoço, lipomas são as lesões mais comuns com metaplasia óssea; esses são conhecidos como osteolipomas.³ A metaplasia óssea raramente é encontrada em pólipos nasais e não tem sido relatada em papiloma invertido.

Relato de caso

Paciente de 68 anos com obstrução nasal bilateral havia sido internado em nossa clínica há 10 meses. Não apresentava quaisquer outros sintomas nasais, tais como cefaleia, epistaxe ou rinorreia. Não tinha histórico de doenças nasais ou cirurgias prévias. O exame físico, incluindo a endoscopia nasal, revelou uma massa nasal multilobulada bilateral que preenchia ambas as fossas nasais (fig. 1). A tomografia computadorizada (TC) de seios paranasais mostrou lesão de tecidos moles com focos ósseos em ambas as fossas nasais (fig. 2). Todo o tecido comprometido foi removido por cirurgia endoscópica (fig. 3). O exame histopatológico revelou papiloma invertido com metaplasia óssea e pólipos inflamatórios em ambos os locais (fig. 4). Nenhuma complicação pós-operatória ocorreu durante o período de

DOI se refere ao artigo:

<https://doi.org/10.1016/j.bjorl.2016.06.012>

☆ Como citar este artigo: Uzun L, Ozkanli S, Kalcioğlu MT, Kokten N, Kafkasli C. Bilateral multifocal inverted papilloma with osseous metaplasia of the sinonasal cavity. Braz J Otorhinolaryngol. 2020;86:520–2.

☆☆ Este relato foi apresentado no 9º Congresso dos Balcãs de Otorrinolaringologia, Cirurgia de Cabeça e Pescoço, 1 a 5 de junho de 2014, Becici (Budva), Montenegro.

* Autor para correspondência.

E-mail: mtkalcioğlu@hotmail.com (M.T. Kalcioğlu).

A revisão por pares é da responsabilidade da Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial.

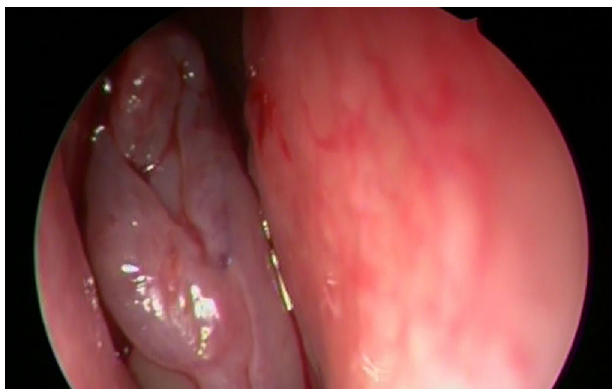


Figura 1 Vista endoscópica da massa nasossinusal.

acompanhamento. Seis meses após a cirurgia, não se observou lesão ou tecido patológico na avaliação endoscópica.

Discussão

A metaplasia é a conversão de um tipo de tecido em um tecido diferente da sua linhagem.¹ Acredita-se que a reprogramação genética de células estaminais epiteliais ou células mesenquimatosas indiferenciadas origine metaplasia.³ A metaplasia pode ocorrer em tecido epitelial ou tecido conjuntivo.² Como representante da metaplasia do tecido conjuntivo, a metaplasia óssea, um achado extremamente raro na cavidade nasal, geralmente é acompanhada por polipose nasal.⁴ A metaplasia óssea também é chamada de ossificação metaplásica ou formação óssea ectópica.^{3,4} A etiologia da metaplasia óssea é desconhecida; acredita-se que ocorra pela diferenciação de um tipo de célula adulta a partir de um osteoblasto.³

Presume-se que a presença de uma célula pluripotencial ou a dediferenciação de uma célula para uma célula pluripotencial em tecidos provoque a formação óssea ectópica.⁵ Os lipomas são as lesões mais comuns associadas a metaplasia óssea nas regiões da cabeça e pescoço. Supõe-se que cirurgia prévia seja um gatilho para o desenvolvimento de



Figura 3 Tecidos patológicos removidos na cirurgia. Eles incluem massa óssea separada anexada a tecidos de papiloma invertido.

metaplasia óssea.⁴ No entanto, de acordo com a maioria das ocorrências relatadas na região nasossinusal, nosso paciente não apresentava história de cirurgia nasossinusal.¹⁻⁵ A calcificação de pólipos nasais devido à hipercalcemia foi relatada,⁴ mas o nível sérico de cálcio, em nosso caso, foi normal. Os hamartomas são erros de desenvolvimento de tecidos e consistem na mistura anormal de tecidos focais.⁵ A calcificação pode ser observada em hamartomas, mas nosso caso não apresentava hamartoma ou lesão congênita. Além disso, uma bola fúngica de seios paranasais pode causar calcificação. Essa lesão pode ser facilmente diagnosticada com tomografia computadorizada.

Embora a hiperostose focal seja um achado esperado,⁶ este é o primeiro relato de metaplasia óssea em papiloma invertido. Lee et al.⁶ estudaram a hiperostose focal



Figura 2 Tumor ósseo multifocal bilateral com lesões de tecido mole em imagens de TC axial e coronal.

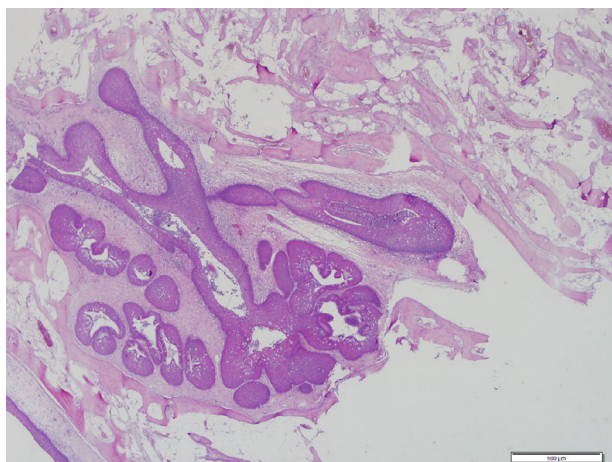


Figura 4 Epitélio escamoso não queratinizado mostra desenvolvimento invertido. Inúmeras células mucíparas no epitélio e epitélio adjacente à metaplasia óssea, contendo medula óssea (H&E, aumento original $\times 40$).

em um exame de TC de papiloma invertido nasossinusal como preditor de origem do tumor. O espessamento excêntrico e esclerose do osso foram definidos como hiperostose focal em apenas uma parte limitada da parede dos seios paranasais e hiperostose focal foi avaliada como um parâmetro de detecção da origem do papiloma invertido em pré-operatórios, por meio de TC.⁶ O papiloma invertido é importante pelo seu potencial de malignidade e alta taxa de recorrência.^{3,6,7} Aqui, apresentamos um caso com papiloma invertido bilateral, multifocal, com metaplasia óssea. Embora os papilomas invertidos comumente se manifestem de maneira unilateral e se originem na parede nasal lateral ou meato médio, no nosso caso a apresentação foi bilateral. Após o tratamento cirúrgico, o exame histopatológico revelou um papiloma invertido bilateral com metaplasia óssea.

O diagnóstico diferencial dos tumores ósseos nasossinais inclui especialmente hiperostose e, também, sequestro ósseo, sinusite fúngica de longa duração, metaplasia e papiloma invertido.^{1,4} O papiloma invertido deve ser excluído primeiro, devido a malignidade potencial, alta taxa de recorrência e caráter localmente agressivo do tumor. A hiperostose é uma lesão benigna, que ocupa a superfície interna do osso no qual é observada e cresce de maneira exuberante. Histologicamente, o osso lamelar é observado nas grandes regiões e remodelação da região craniana pode ser observada. No nosso caso, as regiões ósseas não tiveram relação radiológica nem patológica com o osso.

Metaplasia óssea é a presença de osso no tecido mole. Embora a sua patogenia não seja claramente conhecida, a teoria mais aceita é a de que as células pluripotentes mesenquimatosas diferenciam-se em células progenitoras de osteoblastos pelo efeito das proteínas

ósseas morfogenéticas (POM) e do fator de crescimento de transformação B1 (TGF-B1) e, em seguida, a produção de osteoblastos e matriz óssea ocorre com a sinalização osteogênica.⁸ No nosso caso, como há um tecido ósseo trabecular maduro não relacionado com o tecido ósseo, no interior do pólip, subjacente ao epitélio respiratório, ele foi aceito como uma metaplasia óssea.

Conclusão

Até onde sabemos, este é o primeiro caso relatado de papiloma invertido com metaplasia óssea. Nossos achados indicam que papiloma invertido pode ser uma apresentação incomum de tumor ósseo nasossinusal.

Padrões éticos

Os autores confirmam que os procedimentos que contribuem para este trabalho estão em conformidade com os padrões éticos nacionais pertinentes e com a Declaração de Helsinque de 1975, revisada em 2008.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Márquez Moyano JA, Navarro Cantero A, Garrido Iniesta FJ, Poyato Zamorano C, Marques Asin J. Metaplastic ossification in nasal polyp. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2007;58:276–7.
2. Maitra S, Gupta D, Radojkovic M, Sood S. Osseous metaplasia of the maxillary sinus with formation of a well-developed haversian system and bone marrow. *Ear Nose Throat J.* 2009;88:1115–20.
3. Mercan H, Edizer DT, Kilic E, Esen T, Ramazanoglu R, Cansiz H. Osseous metaplasia in a nasal polyp: report of a rare case and review of the literature. *Ear Nose Throat J.* 2012;91:E4–6.
4. Yilmaz M, Ibrahimov M, Kilic E, Ozturk O. Heterotopic bone formation (Osseous metaplasia) in nasal polyps. *J Craniofac Surg.* 2012;23:620.
5. Ramachandran K, Thomas MA, Denholm RB. Osseous metaplasia of a nasal polyp. *J Otolaryngol.* 2005;34:72–3.
6. Lee DK, Chung SK, Dhong HJ, Kim HY, Kim HJ, Bok KH. Focal hyperostosis on CT of sinonasal inverted papilloma as a predictor of tumor origin. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2007;28:618–21.
7. Giotakis E, Eleftheriadou A, Ferekidou E, Kandiloros D, Manolopoulos L, Yiotakis I. Clinical outcomes of sinonasal inverted papilloma surgery. A retrospective study of 67 cases. *B-ENT.* 2010;6:111–6.
8. Jacono AA, Sclafari AP, Van Der Water T, McCormick S, Frenz D. Metaplastic bone formation in nasal polyps with histologic presence of transforming growth factor beta 1 (TGF-beta1) and bone morphogenetic proteins (BMPs). *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2001;125:96–7.