



Alessandra Di Maria^{1,2}, Vanessa Ferraro^{1,2}, Gianmaria Barone^{1,2}, Paolo Vinciguerra^{1,2}, Filippo Confalonieri^{1,2}

¹ Department of Ophthalmology, IRCCS Humanitas Research Hospital, Rozzano (MI)

² Department of Biomedical Sciences, Humanitas University, Milano

Epifora e patologie inaspettate dei seni paranasali

ABSTRACT

Obiettivo: l'articolo si propone di porre l'attenzione ai casi di epifora persistente unilaterale quale unico segno di ostruzione acquisita secondaria del dotto nasolacrimale (SALDO).

Questa può essere causata da patologie inaspettate e rare, motivo per il quale si sottolineano nel presente articolo i rischi associati ad un iter diagnostico incompleto.

Metodi: i casi presentati sono tutti di epifora unilaterale persistente e nella fattispecie:

1. *Fungus ball:* uomo di 43 anni con diagnosi d'infezione fungina dei seni paranasali che è stata trattata chirurgicamente.
2. *Granuloma piogenico:* uomo di 61 anni con epifora unilaterale affetto da un granuloma piogenico della cavità nasale, che è stato trattato chirurgicamente.
3. *Papilloma invertito sinusale:* uomo di 37 anni affetto da un papilloma invertito sinusale e ha subito un trattamento chirurgico.
4. *Papilloma invertito sinusale con carcinoma squamoso sincro:* donna di 66 anni con una massa mediale che è stata inizialmente diagnosticata come mucocele, in realtà affetta da un papilloma invertito sinusale con carcinoma squamoso sincro.
5. *Carcinoma squamoso del sacco lacrimale:* uomo di 55 anni con massa mediale che simulava un mucocele che è poi stato diagnosticato con un carcinoma squamoso del sacco lacrimale.

Conclusioni: è importante in caso di epifora sottoporre i pazienti ad una valutazione diagnostica mirata a identificare patologie del massiccio cranio-facciale che possano essere responsabili dell'ostruzione del dotto nasolacrimale e che necessitano di procedure chirurgiche ben diverse dalla dacriocistorinostomia.

I chirurghi che affrontano la patologia delle vie lacrimali devono essere consapevoli che l'epifora può essere l'unico segno di una patologia che origina dal complesso osteo-meatale e devono seguire un approccio sistematico e multidisciplinare.

Keywords: PANDO - Primary Acquired Nasolacrimal Duct Obstruction, SALDO - Secondary Acquired Nasolacrimal Duct Obstruction, epiphora, pathologies of the paranasal sinuses, Fungus ball, Pyogenic granuloma, Sinonasal inverted papilloma, Squamous cell carcinoma, Lacrimal sac tumors.

Introduzione

L'epifora è il segno più frequente di una patologia del sistema lacrimale (1).

L'ostruzione del dotto nasolacrimale ha diverse eziologie e può essere primaria o secondaria, l'ostruzione primaria e acquisita del dotto nasolacrimale (PANDO) è la più frequente (2-5). Le cause secondarie, che possono influenzare tutte le parti delle vie lacrimali, comprendono

malattie infettive, infiammatorie, neoplastiche ed esiti di traumi e sono riassunte sotto il termine di "ostruzione secondaria acquisita del dotto nasolacrimale" (SALDO) (6,7,8).

Presso l'Unità Operativa di Oftalmologia dell'Istituto Clinico Humanitas (ICH) - Humanitas Research Hospital, Rozzano (MI) le patologie delle vie lacrimali vengono affrontate con approccio multidisciplinare secondo un preciso

protocollo. Il paziente viene sottoposto a valutazione oculistica e allo studio del sistema lacrimale.

I pazienti che presentano pervietà della via lacrimale alta e quindi una stenosi delle vie basse vengono sottoposti ad una dacrioTC, un esame TC del massiccio facciale con contrasto delle vie lacrimali dato dal lavaggio delle stesse con lo iomeron 350 mg/ml e ricostruzione 3D.

Questo esame permette non solo di vedere dove la via si ferma, indicazione che possiamo avere già indirettamente dal lavaggio ambulatoriale della via lacrimale, ma dice delle anomalie del massiccio facciale, associate o determinanti la stenosi.

Nella nostra casistica di 847 casi, il 72% dei pazienti presenta patologie del complesso osteo-meatale associate alla stenosi delle vie lacrimali. L'esame obiettivo finale è la visita otorinolaringoiatrica con la rinoscopia anteriore.

In questo articolo presentiamo 5 casi in cui l'iter diagnostico suddetto ha consentito di identificare una causa inaspettata di stenosi delle vie lacrimali per la quale la strategia terapeutica non era la dacriocistorinostomia (DCR).

1. Caso 1 (Fungus ball)

Un uomo di 43 anni è stato inviato al reparto di Oculistica lamentando solamente un'epifora unilaterale da 2 mesi. Non aveva sintomi nasali da disventilazione, rinorrea, mal di testa, dolore facciale né cacosmia. L'obiettività oculistica era negativa, ma al lavaggio della via lacrimale si è riscontrata un'ostruzione della via bassa. L'esame endoscopico delle fosse nasali ha evidenziato edema della parete nasale laterale con presenza di polipi nasali sospetti per malattia infiammatoria. La TC e la MRI hanno rilevato una malattia fungina dei seni con immagini suggestive (Fig. 1A-D).

Il fungus ball era caratterizzato da un'area

extramucosa di proliferazione fungina che riempiva più seni paranasali (9).

La diagnosi clinica del fungus ball del seno è difficile perché i sintomi sono aspecifici e circa il 10%-20% dei casi sono asintomatici (11).

Il paziente è stato sottoposto a chirurgia endoscopica funzionale del seno (FESS) sul turbinato inferiore e sul seno mascellare destro. Il trattamento chirurgico del fungus ball consiste nell'aprire la cavità del seno infetto a livello del suo ostio e rimuovere le concrezioni fungine risparmiando il più possibile la mucosa normale (12). In questo modo è stata ottenuta la risoluzione completa della malattia.

L'esplorazione endoscopica attraverso l'antroscopia con un follow-up di pochi giorni e a 21 giorni dopo l'intervento chirurgico ha mostrato la completa risoluzione della malattia in assenza di sintomi.

2. Caso 2 (granuloma piogenico)

Un uomo di 61 anni affetto da sindrome delle apnee ostruttive del sonno (OSAS) è stato inviato al reparto di oculistica per epifora unilaterale persistente. Egli lamentava anche difficoltà respiratorie, ostruzione nasale, rinorrea e sanguinamento nasale sporadico. Questi sintomi sono stati attribuiti all'allergia e all'uso della C-PAP. Al lavaggio della via lacrimale si è evidenziata una ostruzione post-saccale.

Alla visita oculistica sono state escluse altre cause di epifora. L'esame endoscopico delle cavità nasali ha evidenziato una voluminosa lesione rosso-marrone con origine dalla parete nasale laterale destra. La massa alterava i punti di riferimento anatomici e la manipolazione ha provocato un sanguinamento attivo. La TC ha mostrato l'estensione della lesione all'interno della cavità nasale destra e del seno mascellare, fino alla parete mediale del seno mascellare, che era stata erosa.

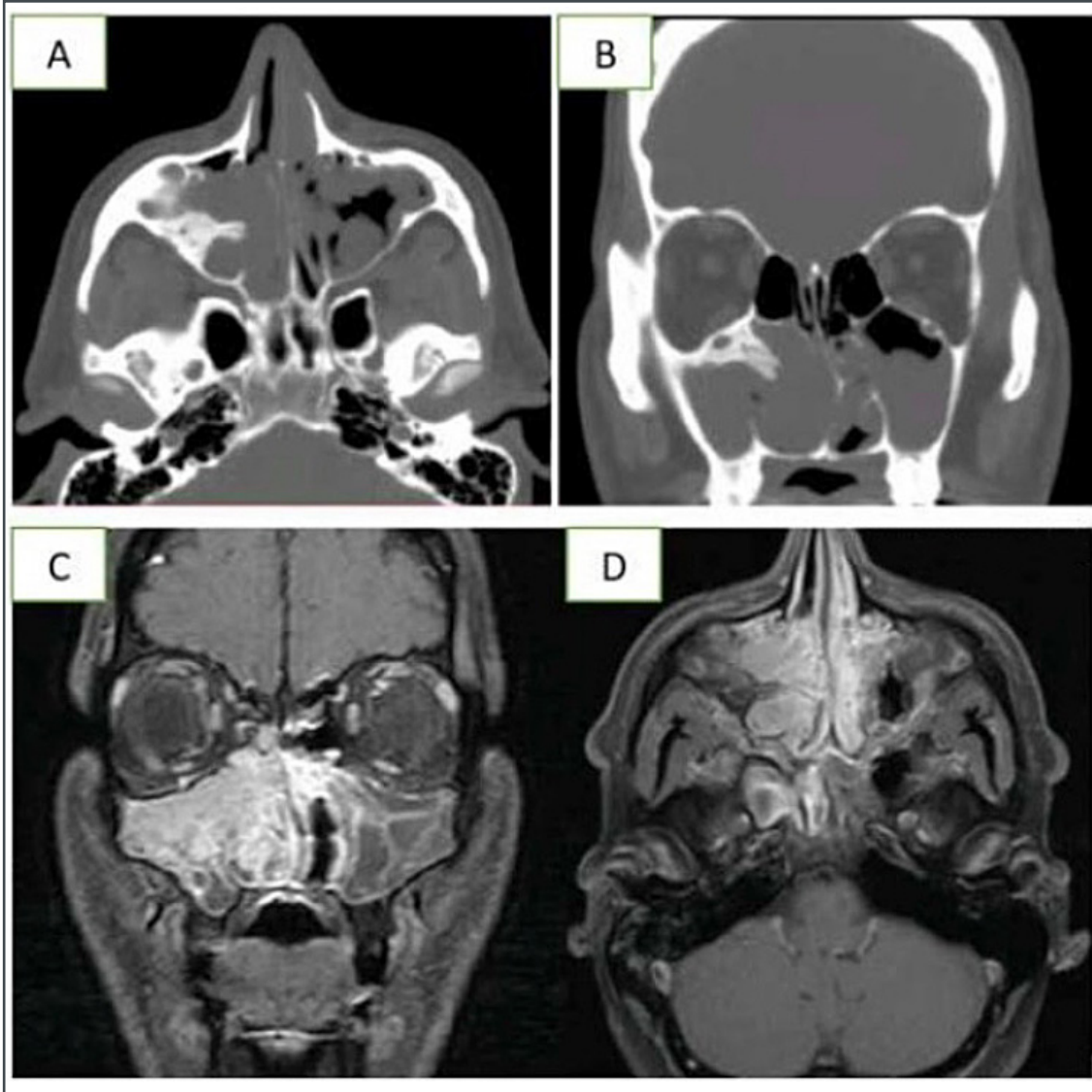


Figura 1 - Caso 1. (A-B): segnale TC eterogeneo a causa di aree di elevata attenuazione causata da elementi ferromagnetici (pattern simile al ferro) con pneumatizzazione del turbinato medio (concha bullosa). (C-D): scansione MRI dello stesso paziente.

La MRI con gadolinio ha consentito di ben definire l'estensione della massa (Fig. 2A-D). È stata eseguita una FESS (chirurgia funzionale endoscopica del seno) per rimuovere la massa e la parte inferiore dei turbinati. A causa dell'erosione della parete nasale laterale, si è formata una stomia tra il sacco lacrimale e la cavità nasale. L'esame istopatologico ha posto diagnosi di granuloma piogenico, una neoformazione di natura benigna con una componente vascolare caratterizzata da cellule infiammatorie e proliferazione capillare lobulare (13). Il paziente è stato seguito ogni tre mesi per un anno, ha avuto risoluzione dell'epifora e nessun segno di recidiva.

3. Caso 3 (papilloma invertito)

Un uomo di 37 anni è stato sottoposto a DCR esterna destra nel 2007 per epifora persistente associata a ostruzione nasale bilaterale e rinorrea. Dopo 15 mesi, non si è verificato alcun miglioramento dei sintomi, quindi il paziente è stato indirizzato al nostro ospedale per epifora ricorrente destra.

Al sondaggio è stata diagnosticata un'ostruzione post-saccale. L'obiettività oculistica aveva escluso altre cause di epifora.

L'esame endoscopico delle cavità nasali ha mostrato polipi nasali bilateralmente con coinvolgimento del complesso osteomeatale e rinorrea purulenta di eziologia incerta. Inizialmente il

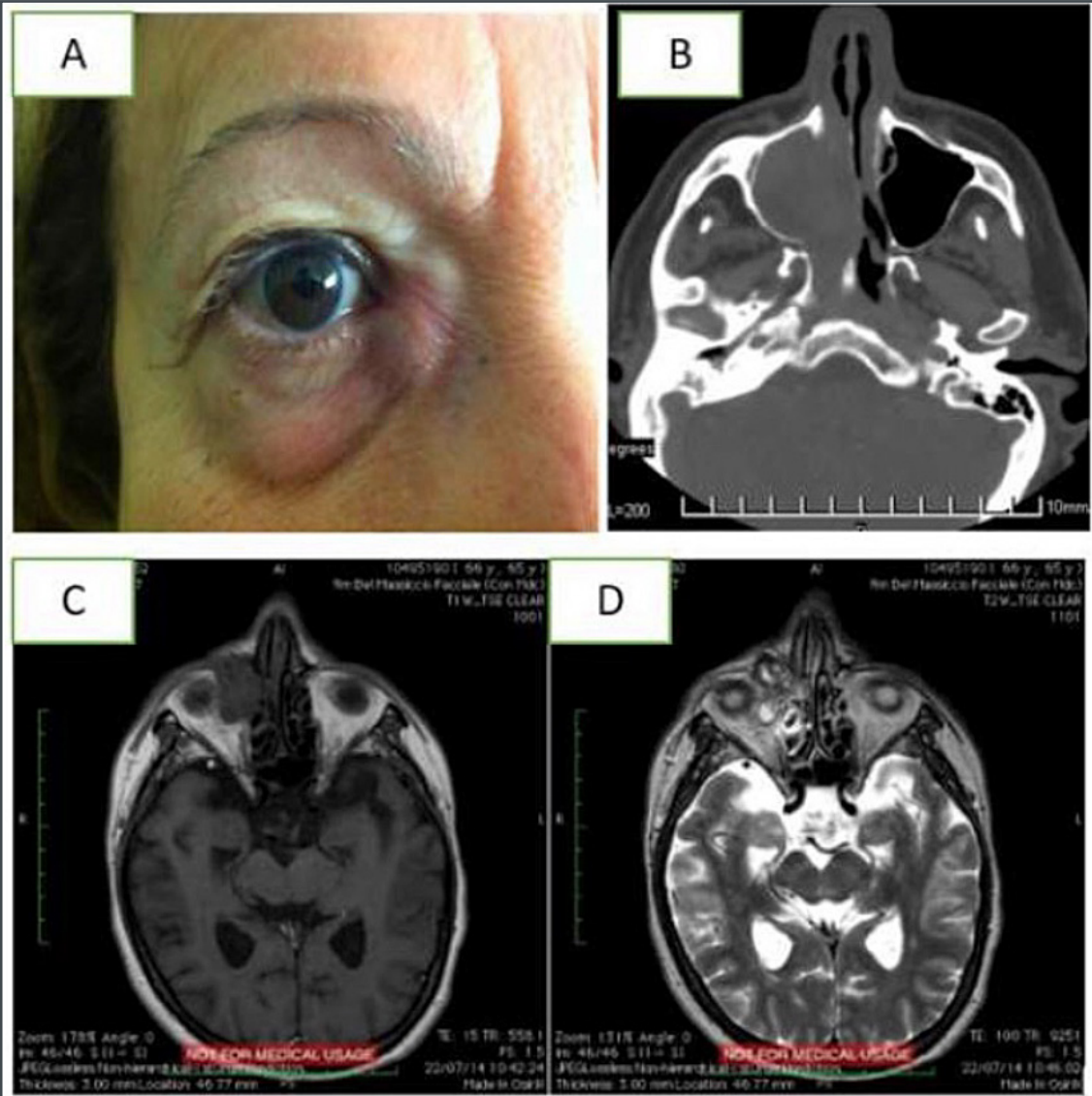


Figura 2 - Caso 2. (A): aspetto esterno del paziente. TC (B) e MRI con gadolinio (C, D) che mostrano il pattern radiologico del voluminoso tumore centrato sul turbinato inferiore e sulla parete nasale laterale con coinvolgimento della valvola di Hasner. L'elevata vascolarizzazione è responsabile dei vuoti di segnale. La parete mediale del seno mascellare e del dotto nasolacrimale manifestano erosione dovuta alla compressione ma non vi è alcun segno radiologico secondario ad infiltrazione ossea.

paziente è stato trattato con terapia sistemica con antibiotici e steroidi per 10 giorni. Un ulteriore esame endoscopico ha rivelato una massa sottostante la parete nasale laterale destra. Si presentava una lesione grigia, compatta, lobulata che riempiva il meato medio, sospetta per papilloma invertito. La TC ha mostrato opacità bilaterali delle fosse nasali e opacità del seno mascellare. Nella cavità destra, la massa stava deviando il setto nasale verso il lato sinistro. La risonanza magnetica ha evidenziato l'aspetto radiologico caratteristico di una massa ad invasività locale (Fig. 3A-D). Infine, l'esame istopatologico ha confermato la

diagnosi di papilloma invertito, una rara malattia sinusale caratterizzata da tre peculiarità: un potenziale relativamente forte per distruzione locale, alto tasso di recidiva e rischio di evoluzione carcinomatosa (14). L'approccio chirurgico è consistito nella maxillectomia endoscopica (rimozione della parete mediale del seno mascellare destro) e resezione del dotto nasolacrimale e DCR endonasale.

4. Caso 4 (papilloma invertito con carcinoma cellulare squamoso sincro)

Una donna di 66 anni si è presentata al reparto di oftalmologia con epifora unilaterale di lunga

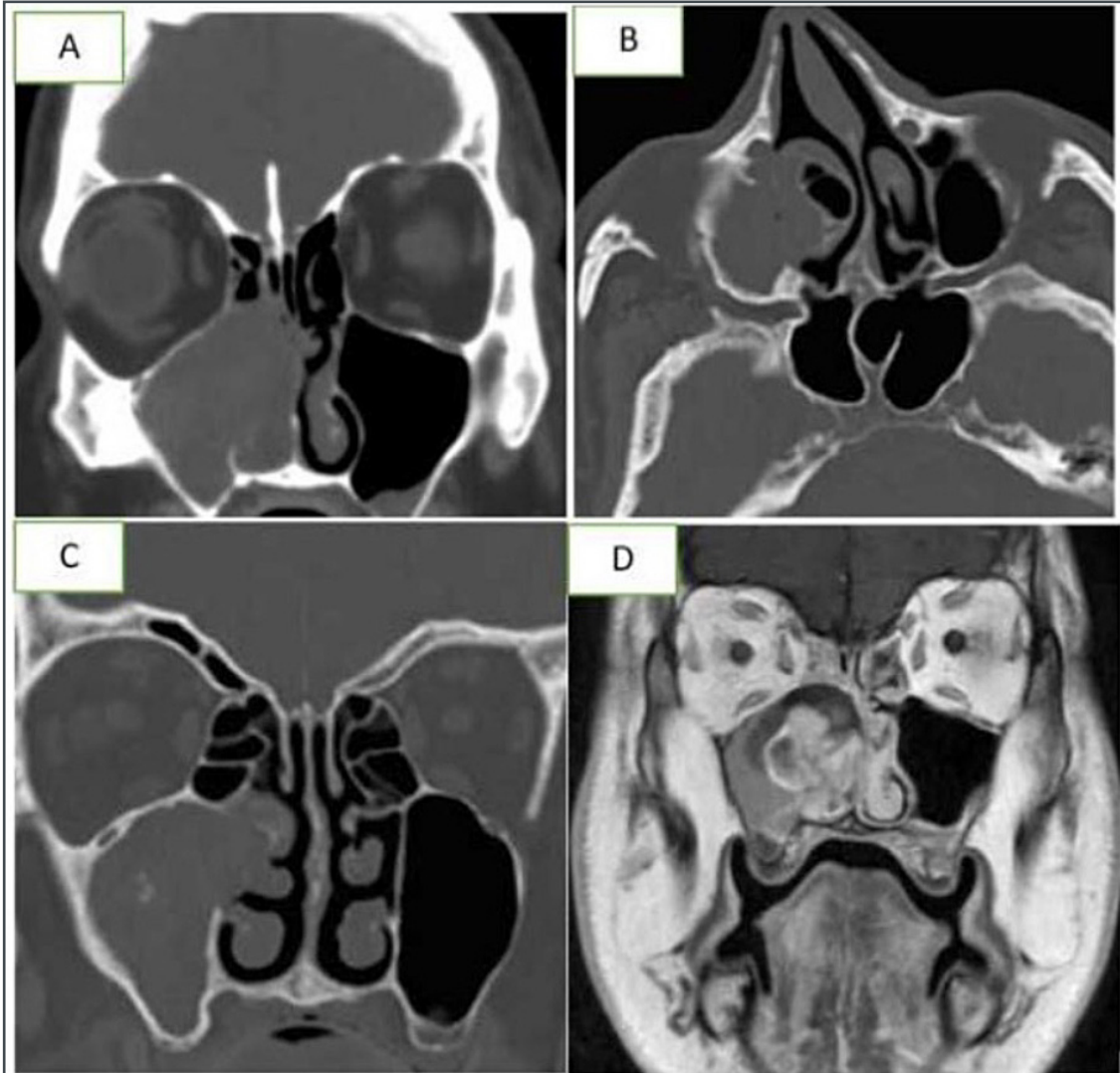


Figura 3 - Caso 3. (A-B): TC che mostra l'erosione della parete media del seno mascellare e l'iperostosi della parete orbitaria inferiore come unico segno peculiare. (C-D): MRI che evidenzia le caratteristiche del papilloma invertito, incluso l'aspetto contorto alle immagini pesate in T1 e T2 con contrasto. Questo aspetto caratteristico è legato all'alternanza di segnale ipointenso e iperintenso all'interno della massa.

durata recentemente peggiorata in maniera progressiva, massa cantale mediale destra e proptosi. La valutazione precedente aveva posto diagnosi di mucocele. L'ostruzione post-saccale è stata rilevata al sondaggio della via lacrimale. L'esame endoscopico delle cavità nasali ha mostrato edema della parete nasale laterale destra, simile a un'infezione secondaria a una sovra-infezione del sacco lacrimale. Le scansioni TC e MRI con gadolino hanno evidenziato un'estensione locale di malattia ai seni paranasali fino alla lamina cribiforme e all'orbita (Fig. 4A e B). Il paziente è stato sottoposto a rinosinotomia laterale con orbitotomia. La cavità orbitaria è stata riempita da un lembo di muscolo temporale,

ricoperto a sua volta da un innesto cutaneo dermo-epidermico (Thiersch). L'esame istologico ha diagnosticato un papilloma invertito con carcinoma a cellule squamose sincrone.

Il carcinoma sincrone è una neoplasia riscontrata in media nel 7% dei casi di papilloma invertito ed è associato a una prognosi infausta (15).

Il paziente è stato sottoposto a radioterapia adiuvante dopo intervento chirurgico. In tali condizioni si raccomanda il follow-up per tutta la vita del paziente (15).

5. Caso 5 (carcinoma a cellule squamose del sacco lacrimale)

Un maschio iraniano di 55 anni è stato inviato

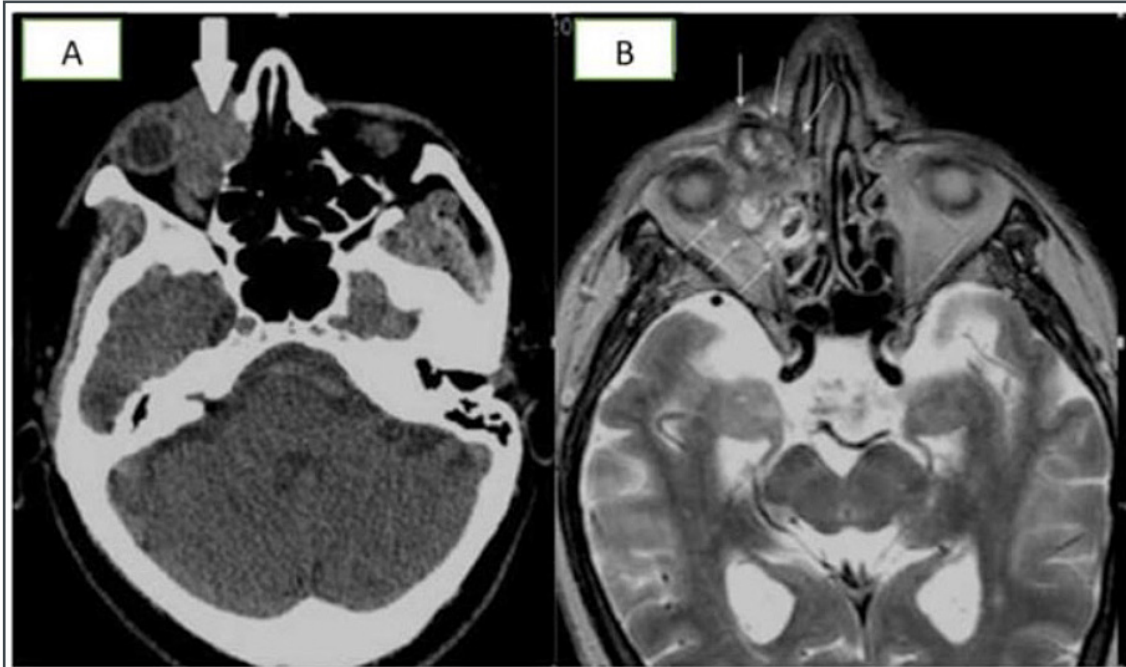


Figura 4 - Caso 4. (A) La TC assiale senza enhancement mostra l'erosione ossea della lamina papiracea dell'osso etmoidale. (B) La sequenza assiale T2-pesata mostra una massa extraconale e intraconale (freccie bianche) nell'orbita destra, con iperintensità non omogenea e margini irregolari. La lesione coinvolge il dotto nasolacrimale, la lamina papiracea e le cellule etmoidali anteriori.

in ICH lamentando epifora unilaterale persistente associata a infezioni congiuntivali ricorrenti, complicata da edema delle palpebre, del canto mediale destro e della regione del sacco lacrimale. Si è evidenziata l'ostruzione della via al sondaggio. Era presente chemosi congiuntivale severa. All'esame endoscopico delle cavità nasali non c'erano segni di malattia. La TC e la risonanza magnetica hanno evidenziato una massa che coinvolgeva il sacco lacrimale con estensione fino all'orbita destra (Fig. 5 A).

Una biopsia della mucosa congiuntivale ha permesso di fare diagnosi di carcinoma a cellule squamose.

I tumori del sacco lacrimale sono rari ma il loro riconoscimento e la gestione precoce è fondamentale, poiché sono localmente invasivi e potenzialmente pericolosi per la vita. Allo stato attuale, un totale di circa 430 casi di tumori primitivi sono stati riportati in letteratura.

Dei tumori del sacco lacrimale, il carcinoma a cellule squamose è il tipo più comune (16).

Il paziente è stato sottoposto a resezione craniofacciale esterna mediante rinfotomia laterale

e orbitectomia. La cavità orbitaria è stata riempita con un lembo di muscolo retto addominale (Fig. 5B-D).

Il paziente è stato sottoposto ad un trattamento combinato con chemioterapia neoadiuvante e radioterapia.

Purtroppo, il paziente è deceduto due anni dopo a causa di metastasi cerebrali.

Discussione

L'epifora monolaterale persistente era il disturbo principale che presentavano i pazienti seppur affetti da patologie a carico del massiccio facciale molto diverse tra loro.

Questo sottolinea l'importanza di escludere per tempo condizioni che possano avere una prognosi infausta.

L'approccio multidisciplinare ha cambiato la gestione clinica e la strategia chirurgica in tutti i casi qui riportati.

Conclusioni

Le neoformazioni benigne o maligne del massiccio facciale che danno come primo ed unico

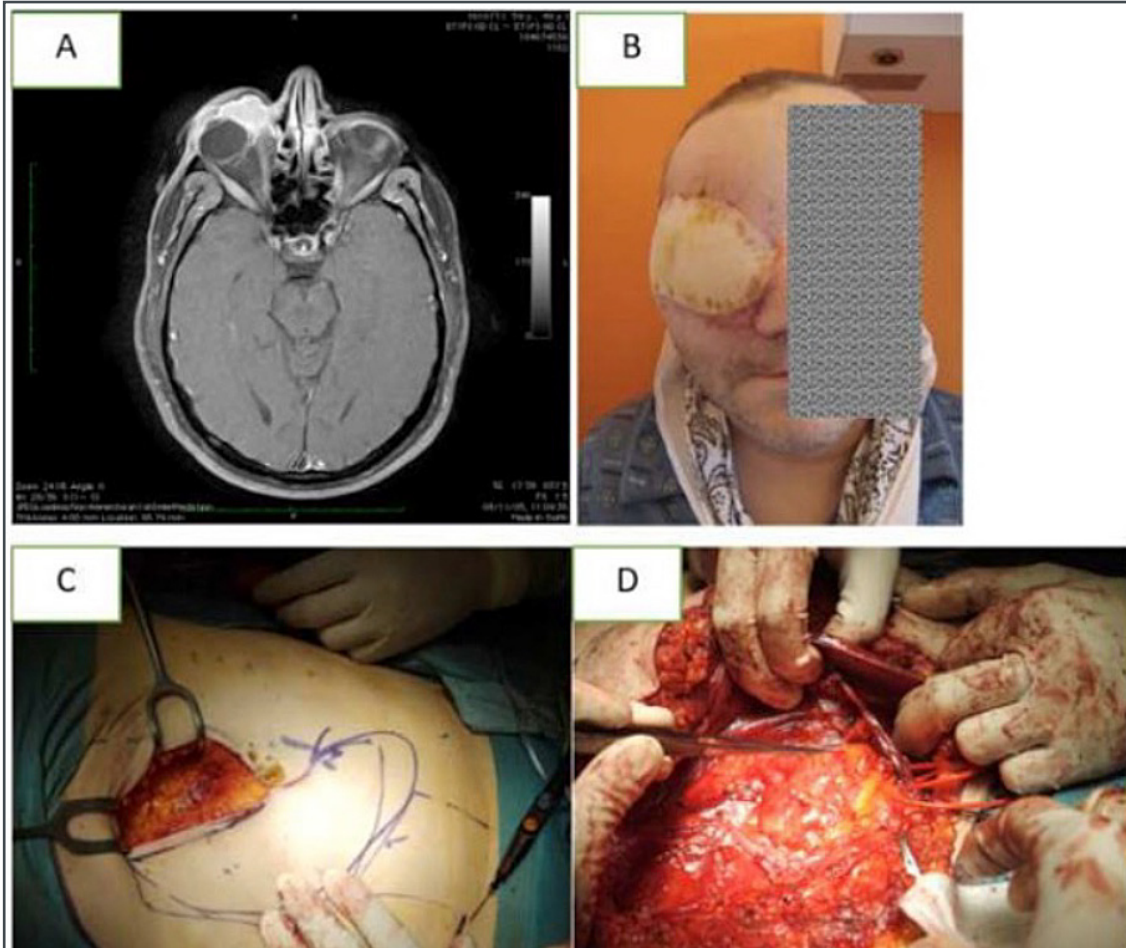


Figura 5 - Caso 5. (A) MRI pesata in T1 che mostra una massa che coinvolge il sacco lacrimale e si estende fino all'orbita. (B) Aspetto del paziente al follow-up a 1 mese. (C-D) La cavità orbitaria è stata riempita con un lembo peduncolato del retto dell'addome attraverso l'anastomosi con la vena giugulare interna e l'arteria facciale.

segno una stenosi del dotto nasolacrimale sono rare, ma devono essere identificate. Le procedure di DCR ab externo ed endonasali sono ugualmente valide nel creare una via alternativa per il drenaggio delle lacrime e quindi la risoluzione

dell'epifora (17).

Tuttavia, indipendentemente dalla scelta personale tra queste due procedure, lo studio preoperatorio del paziente deve essere rigoroso e multidisciplinare (18).

REFERENCES

1. Barry K, Jackson J, Williams K. The tearing patient. *Elsevier Disease-a-Month*. March 2017;63(3):68–71.
2. Nemet Arie Y. The etiology of epiphora: a multifactorial issue. *Semin Ophthalmol*. 2016;31(3):275–279. <https://doi.org/10.3109/08820538.2014.962163>.
3. Paulsen F. New insights into the pathophysiology of primary acquired dacryostenosis. *Ophthalmology*. 2001;108(12):2329–2336. [https://doi.org/10.1016/S0161-6420\(01\)00946-0](https://doi.org/10.1016/S0161-6420(01)00946-0).
4. Yazici H, Bulbul E, Yazici A, et al. Primary acquired nasolacrimal duct obstruction: is it really related to paranasal abnormalities? *Surg Radiol Anat*. 2015;37:579–584. <https://doi.org/10.1007/s00276-014-1391-6>.
5. Linberg JV, McCormick SA. Primary acquired nasolacrimal duct obstruction. A clinicopathologic report and biopsy technique. *Ophthalmology*. 1986;93:1055–1063.
6. Bartley GB. Acquired lacrimal drainage obstruction: an etiologic classification system, case reports, and a review of the literature. Part 2. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg*. 1992;8:243–249.
7. Ginzkey C, Mlynski R. Die Behandlung von Tränenwegenstenosen aus HNO-ärztlicher Sicht. *HNO*. 2016;64(6):394–402. <https://doi.org/10.1007/s00106-016-0168-0>.
8. Weber RK, Keerl R, Schaefer SD, Rocca RC. *Atlas of Lacrimal Surgery*. Springer; 2007.

9. Roos J, Ezra D, Rose G. 'Preoperative imaging should be performed for all cases of acquired nasolacrimal duct obstruction'—No. *Eye*. 2017;31:349–350. <https://doi.org/10.1038/eye.2016.236>.
11. Dufour X, Kauffmann-Lacroix C, Ferrie JC, et al. Paranasal sinus fungus ball: epidemiology, clinical features and diagnosis. A retrospective analysis of 173 cases from a single medical center in France, 1989-2002. *Med Mycol*. 2006;44:61–67.
12. Dufour X, Kauffmann-Lacroix C, Ferrie JC, et al. Paranasal sinus fungus ball and surgery: a review of 175 cases. *Rhinology*. 2005 Mar;43(1):34–39.
13. Lopez A, Tang S, Kacker A, Scognamiglio T. Demographics and etiologic factors of nasal pyogenic granuloma. *Int Forum Allergy Rhinol*. 2016;6:1094–1097.
14. Lisan Q, Laccourreye O, Bonfils P. Sinonasal inverted papilloma: from diagnosis to treatment, Elsevier Review. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. November 2016;133(Issue 5):337–341.
15. Mirza S, Bradley PJ, Acharya A, Stacey M, Jones NS. Sinonasal inverted papillomas: recurrence, and synchronous and metachronous malignancy. *J Laryngol Otol*. 2007; 121. <https://doi.org/10.1017/S002221510700624X>, 09.
16. Krishna Y, Coupland SE. Lacrimal sac Tumours-a review. *Asia Pac J Ophthalmol*. 2017;6:173–178.
17. Jawaheer L, MacEwen CJ, Anijeet D. Endonasal versus external dacryocystorhinostomy for nasolacrimal duct obstruction. *Cochrane Database Syst Rev*. 2017;2(2), CD007097. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD007097.pub3>.
18. Confalonieri F, Balia L, Piscopo R, Malvezzi L, Di Maria A. Epiphora and unrecognized paranasal sinuses pathology. *Am J Ophthalmol Case Rep*. 2020 Jul 3;19:100798. doi: 10.1016/j.ajoc.2020.100798. PMID: 32671284; PMCID: PMC7350086.