



Acta de Otorrinolaringología & Cirugía de Cabeza y Cuello

www.revista.acorl.org.co



Reportes de caso

Cefalea rinogénica causada por mucopiocele en concha bullosa, un origen infrecuente. Reporte de caso

Rhinogenic headache caused by concha bullosa mucopyocele, an unusual origin. Case Report

Shirley Andrea Ramírez-Merlano*, Nelson Delgado**, Diana Cortés***.

* Residente de Otorrinolaringología, Universidad del Rosario, Hospital Universitario Méderi. Bogotá, Colombia. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-0283-2444>

** Otorrinolaringólogo, Hospital Universitario Méderi. Bogotá, Colombia. ORCID: <https://orcid.org/0009-0003-7658-0443>

*** Médico general, Universidad del Rosario. Bogotá, Colombia. ORCID: <https://orcid.org/0009-0009-6030-929X>

Forma de citar: Ramírez-Merlano SA, Delgado N, Cortés D. Cefalea rinogénica causada por mucopiocele en concha bullosa, un origen infrecuente. Reporte de caso. Acta otorrinolaringol. cir. cabeza cuello. 2023;51(2):155-159. DOI.10.37076/acorl.v51i2.700

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 12 de septiembre de 2022

Evaluado: 08 de junio de 2023

Aceptado: 27 de junio de 2023

Palabras clave (DeCS):

Mucocele, cornetes nasales, cefalea.

RESUMEN

Introducción: la cefalea rinogénica es secundaria al contacto permanente de la mucosa nasal y puede ser secundario a concha bullosa, si se infecta puede ser mucocele o mucopiocele. **Caso clínico:** paciente de 34 años con cefalea hemi-craneal izquierda, dolor periocular ipsilateral, congestión y rinorrea hialina con cambios en consistencia y coloración del moco. En la tomografía computarizada (TAC) de senos paranasales (SPN) desviación septal derecha por concha bullosa izquierda, ocupación de líquido. Se sospecho mucocele y cefalea rinogénica secundaria, prueba de lidocaína positiva. Se detecto por cultivo, *Eikenella corrodens*. Manejo con antibiótico y posterior resolución de patología. **Conclusiones:** debe incluirse en el diagnóstico diferencial de cefalea y concha bullosa, realizarse endoscopia nasal y TAC de SPN. El manejo quirúrgico ha demostrado reducir la intensidad y la frecuencia de la cefalea a corto y largo plazo, y es exitoso si hay test de lidocaína positivo.

Correspondencia:

Dra. Shirley Andrea Ramírez-Merlano

E-mail: shirleya.ramirez@urosario.edu.co

Dirección: carrera 13 # 138-41, Apto 1110

Teléfono: +57 301 7590390

ABSTRACT

Key words (MeSH):

Mucocele, turbinates, headache.

Introduction: rhinogenic headache is secondary to permanent contact with the nasal mucosa and may be secondary to concha bullosa, if infected it may be mucocele or mucopiocele. *Clinical case:* 34-year-old patient with left hemicranial headache, ipsilateral periocular pain, congestion, and hyaline rhinorrhea with changes in consistency and coloration of the mucus. In the computed tomography (CT) of the paranasal sinuses (SPN) right septal deviation due to left concha bullosa, fluid occupation. Mucocele and secondary rhinogenic headache were suspected, lidocaine test positive. *Eikenella corrodens* was detected by culture. Management with antibiotics and subsequent resolution of pathology. *Conclusions:* nasal endoscopy and SPN CT should be included in the differential diagnosis of headache and concha bullosa. Surgical management has been shown to reduce headache intensity and frequency in the short and long term, and is successful if there is a positive lidocaine test.

Introducción

La cefalea es un síntoma común pero difícil de evaluar debido a su amplia gama de presentaciones clínicas y diferentes etiologías. A lo largo del tiempo, la comprensión conceptual de las causas de la cefalea se ha atribuido a anomalías anatómicas de la nariz y los senos paranasales (1).

La cefalea rinogénica es el resultado del contacto permanente de la mucosa nasal, lo que ocasiona dolor referido a los dermatomas de la I y II rama del nervio trigémino. Este estímulo nervioso puede ser secundario a alteraciones anatómicas en la cavidad nasal como la concha bullosa, que se presenta en el 14 %-53 % de la población; esta variante anatómica es causante de cefalea rinogénica en el 29 % de los casos y se puede convertir en mucocele o mucopiocele si se infecta. Este último es poco frecuente, ya que a partir de la búsqueda realizada solo se encontraron siete casos reportados en la literatura (2-4).

En la mayoría de los casos, esta entidad es asintomática, sin embargo, puede producir síntomas como cefalea de característica rinogénica, siendo este el síntoma principal como se describe en este caso clínico. Adicionalmente, los pacientes pueden presentar congestión nasal, rinorrea, anosmia, obstrucción nasal, ronquidos y goteo posnasal (2, 5-7); el diagnóstico termina siendo un desafío dado que es una patología infrecuente, poco estudiada y los hallazgos imagenológicos pueden llevar al médico a sospechar un diagnóstico diferente como una lesión expansiva en la cavidad nasal. La demora en el diagnóstico y el tratamiento adecuado impacta negativamente en la calidad de vida de los pacientes (1, 8).

Caso clínico

Se presenta el caso clínico de una paciente femenina de 34 años de edad, con antecedente de alergia a las penicilinas, quien presenta un cuadro clínico de aproximadamente un mes de evolución consistente en fiebre subjetiva, cefalea holocraneana de intensidad 9/10 según la escala visual análoga (EVA), sudoración asociada, flushing facial y automedica-

da con acetaminofén que mejoró parcialmente el dolor, que posteriormente evoluciona a cefalea hemicraneal izquierda con dolor periocular ipsilateral asociado, congestión nasal, estornudos, rinorrea hialina persistente con cambios en la consistencia y coloración del moco, adicionalmente con episodios de disestesias a nivel hemicara izquierda. La paciente recibió múltiples manejos antibióticos sin mejoría; por lo tanto, gracias a la persistencia de cefalea consulta a nuestra institución. En el examen físico realizado se observa una deflexión alta en área II derecha no obstructiva y disestesias en la rama V2 hemicara izquierda, con hallazgos de tomografía axial computarizada (TAC) de senos paranasales de concha bullosa izquierda contactante con el septum nasal causante de septodesviación a la derecha, con ocupación de material de tejidos blandos sugestivos de mucocele con líquido en su interior (**Figura 1A, B y C**). Por esta razón, en el consultorio se realizó un test de lidocaína previo a la localización del sitio de contacto en la fosa nasal izquierda; para esto, se posicionaron algodones con lidocaína tópica y después de 15 minutos se preguntó al paciente sobre el alivio del dolor, cuya respuesta fue positiva.

Se decide llevar a cirugía bajo anestesia general. Con un lente de 0° se realiza una nasosinuscopia con hallazgos de septodesviación derecha alta en el área II no obstructiva y concha bullosa izquierda; se aspira con aguja y se obtiene un drenaje de 3 cc de material francamente purulento; se realiza una incisión en línea media de cornete medio izquierdo hasta el caudal separando ambos lados, medial y lateral; posteriormente, se procede a hacer una resección de mucosa y cara lateral a nivel de cabeza y parte del cuerpo del cornete medio izquierdo; se realiza una uncinectomía, permeabilización de antro maxilar izquierdo, lavado y hemostasia y se observa una adecuada permeabilidad nasal; por último, se realiza el taponamiento con merocel izquierdo, se envía muestra al laboratorio para cultivo y se termina el procedimiento sin complicaciones.

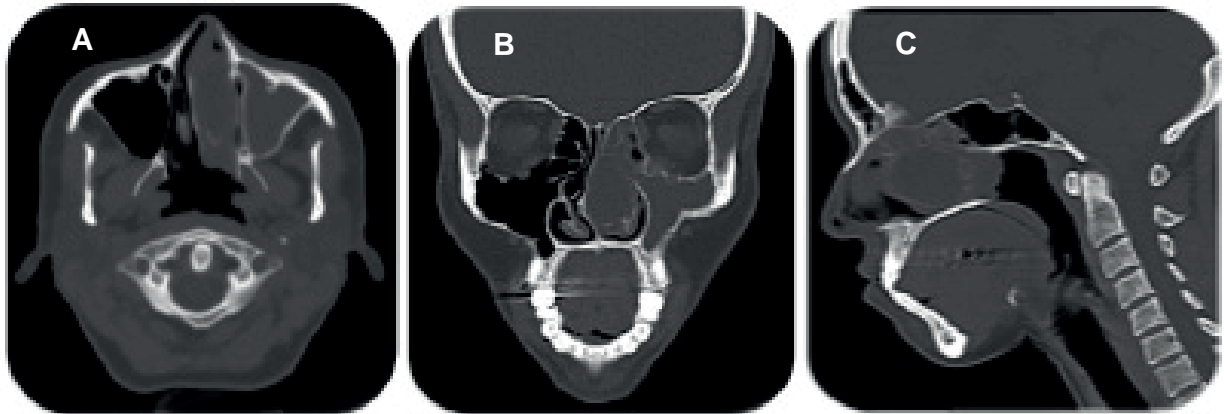


Figura 1. TAC de senos paranasales. Ocupación de material en tejidos blandos en el seno etmoidal y maxilar izquierdo; con obliteración del complejo osteomeatal izquierdo por concha bullosa izquierda ocupada por líquido y visualizada en un corte axial (A), coronal (B), sagital (C). Fuente: imágenes tomadas de la historia clínica del paciente.

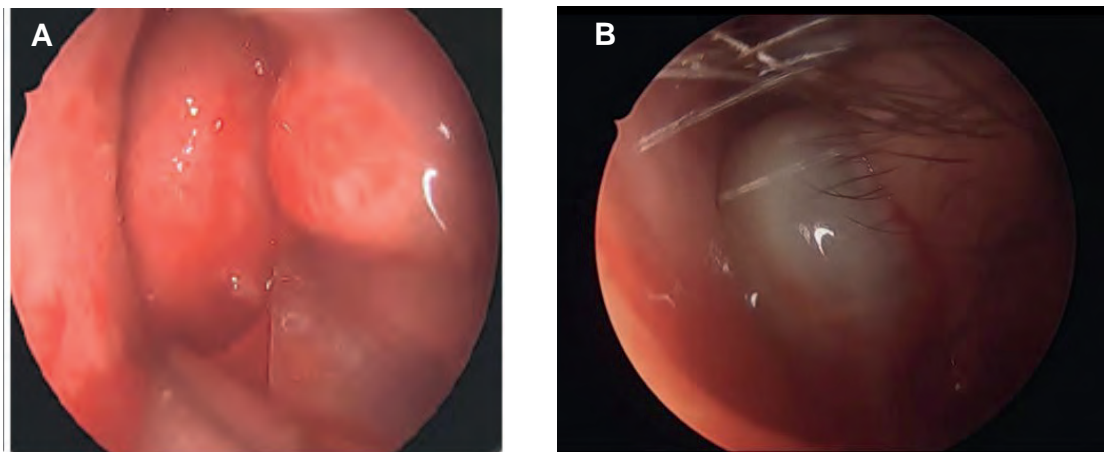


Figura 2. Fotografía intraquirúrgica con lente de 0 grados de la fosa nasal izquierda, drenaje de la concha bullosa izquierda. A. Vista endoscópica con lente de 0 grados de la cavidad nasal izquierda e identificación de la concha bullosa. B. Vista endoscópica con lente de 0 grados de la cavidad nasal izquierda con drenaje de material purulento. Fuente: imágenes tomadas de la historia clínica del paciente.

Los resultados del cultivo muestran un crecimiento de *Eikenella corrodens*, por lo cual se indica a la paciente terminar el tratamiento con azitromicina por siete días y se realiza el control. A la semana posoperatoria la paciente presenta una adecuada respuesta al tratamiento con una EVA 0/10, mejoría completa de la sintomatología clínica y sin complicaciones.

Discusión y revisión de la literatura

La cefalea es un síntoma común pero difícil de evaluar, sin embargo, a lo largo del tiempo la comprensión conceptual de las causas del dolor de cabeza se ha atribuido a anomalías anatómicas de la nariz y los senos paranasales como otro factor etiológico importante (1).

En 1988, Stammberger y Wolf plantearon la hipótesis del origen rinogénico a un tipo particular de cefalea, causado por la estimulación de los dermatomas de la I y II rama del

nervio trigémino por el contacto permanente de la mucosa nasal, hipoxia de los senos paranasales debido a ventilación pobre o ausente y presión causada por pólipos nasales (1). Las cefaleas por puntos de contacto generan arcos reflejos axonales tras la estimulación constante entre las dos superficies mucosas dentro de la cavidad nasal o senos paranasales; este reflejo desencadena la liberación de sustancia P, un neuropéptido vasodilatador que se encuentra en las fibras nerviosas no mielinizadas del grupo C, fuga de plasma (edema neurogénico) y liberación de histamina, entre otros eventos inflamatorios, y este fenómeno es el responsable de la cefalea secundaria al contacto nasal (1, 2).

Este estímulo nervioso por contacto mucoso puede ser secundario a alteraciones anatómicas en la cavidad nasal de la concha bullosa, descrita por primera vez por Zuckerkandl en 1893, y esta es la variante más común en la anatomía nasal con una incidencia que varía del 14 % al 53 % (9, 10) y

responsable de cefalea rinogénica en el 29 % de los casos, seguido de la desviación septal en el 18 % y el espolón septal en el 10 % (11).

La neumatización del cornete medio se conoce como concha bullosa. La patogenia sobre el desarrollo del mucoccele de la concha bullosa no está esclarecida y algunas hipótesis argumentan que es el bloqueo crónico del ostium de la concha bullosa el que impide el flujo de aire adecuado (factor mecánico); por otro lado, la alergia y la infección aparecen como otro factor de tipo inflamatorio (2, 3).

En la exploración física se puede observar una lesión expansiva cubierta de mucosa intacta y lisa que ocupa la cavidad nasal, este hallazgo dependerá del tamaño y la expansión de la concha bullosa; adicionalmente, se puede observar una desviación contralateral del septo, sin embargo, la rinoscopia anterior y la endoscopia proporcionan una información limitada, por lo que es necesario solicitar imágenes diagnósticas ante estos hallazgos (10).

La TAC es la técnica de imagen de elección en estos casos, ideal para visualizar estructuras óseas, además proporciona información detallada del cornete medio, estructuras nasales y paranasales. En los hallazgos clásicos de esta patología se destaca una masa de tejido blando con contorno óseo que suele causar una desviación del septum o compresión de estructuras circundantes; el borde óseo se considera el principal hallazgo en la tomografía que permite la identificación de una concha bullosa en el cornete medio, en comparación con otras lesiones o masas. A pesar de ello, su ausencia y los hallazgos clínicos pueden conducir a diagnósticos erróneos frecuentes como malignidad, lo que conduce a más investigaciones diagnósticas y/o tratamientos inadecuados que terminan impactando negativamente la calidad de vida del paciente (9, 12).

Este caso ilustra una cefalea rinogénica que cumple los criterios de la International Classification of Headache Disorders: cefalea ipsilateral que empeora y se ha desarrollado en paralelo con la alteración nasal, y mejora al controlar la alteración nasal (1).

La cefalea rinogénica requiere un enfoque multidisciplinario, una historia clínica completa, una endoscopia nasal bien realizada y una TAC de los senos paranasales (2, 3, 7). Adicionalmente, Chow y Clerico describen la aplicación de anestésico como parte del diagnóstico de esta entidad, así como el test de lidocaína en el punto de contacto es una prueba efectiva, un test positivo ha demostrado la mejoría de los síntomas en el 98 % en los pacientes llevados a cirugía (4).

Una vez establecido el diagnóstico correcto, el tratamiento de elección es la cirugía endoscópica con base en cuatro métodos: marsupialización lateral o medial, aplastamiento y escisión transversal. La cirugía debe extenderse, según sea necesario, para abordar todos los sitios identificados de obstrucción y enfermedad concomitante de los senos paranasales; el tratamiento quirúrgico sobre el tratamiento médico ha demostrado reducir significativamente la intensidad y la frecuencia de la cefalea a corto y largo plazo, como se demostró en nuestro caso clínico (2, 6, 13).

Conclusiones

La cefalea rinogénica secundaria al contacto mucoso permanente, causado por una concha bullosa que puede evolucionar a mucoccele o mucopiocele –este último con solo siete casos reportados en la literatura–, es una patología poco frecuente con hallazgos clínicos e imagenológicos que pueden sugerir múltiples diagnósticos diferenciales, incluyendo lesiones expansivas, retrasar de esta manera el diagnóstico y el tratamiento e impactar negativamente la calidad de vida del paciente. Esta patología requiere un enfoque multidisciplinario, una historia clínica completa, una endoscopia nasal y una TAC de senos paranasales. Adicionalmente, se resalta que el test de lidocaína es una prueba diagnóstica de gran utilidad de bajo costo y logra determinar qué pacientes requieren tratamiento quirúrgico. Dada la escasa evidencia médica en la literatura, se requieren estudios adicionales con el fin de disminuir la posibilidad de pasar por alto esta condición como un posible diagnóstico diferencial y tratamiento de la misma. Como limitaciones de este estudio se considera que no se cuenta con una muestra poblacional significativa, lo que conlleva una baja validez externa. Asimismo, a pesar de obtener resultados muy favorables en el caso presentado, se requieren estudios adicionales sobre esta patología.

Conflicto de intereses

Ninguno declarado por los autores.

Financiación

Ninguna.

Agradecimientos

Ninguno.

Aspectos éticos

Hubo contribución de cada uno de los autores en cada etapa de la realización del artículo. El paciente mencionado dio su autorización para la publicación de las imágenes y la historia clínica, con fines exclusivamente académicos.

Declaración de conflicto de intereses

No se presenta ningún conflicto de interés.

Aspectos éticos

Hubo contribución de cada uno de los autores en cada etapa de la realización del artículo; además, se solicitó el consentimiento informado del paciente de acuerdo con los principios éticos contenidos en la Declaración de Helsinki para la publicación de su caso y de las imágenes obtenidas con fines académicos.

REFERENCIAS

1. Bernichi JV, Rizzo VL, Villa JF, Santos RF, Caparroz FA. Rhinogenic and sinus headache - Literature review. *Am J Otolaryngol*. 2021;42(6):103113. doi: 10.1016/j.amjoto.2021.103113
2. Khalife S, Marchica C, Zawawi F, Daniel SJ, Manoukian JJ, Tewfik MA. Concha bullosa mucocoele: A case series and review of the literature. *Allergy Rhinol (Providence)*. 2016;7(4):233-43. doi: 10.2500/ar.2016.7.0179
3. Shihada R, Luntz M. A concha bullosa mucopyocele manifesting as migraine headaches: a case report and literature review. *Ear Nose Throat J*. 2012;91(5):E16-8. doi: 10.1177/014556131209100518
4. Mokbel KM, Abd Elfattah AM, Kamal el-S. Nasal mucosal contact points with facial pain and/or headache: lidocaine can predict the result of localized endoscopic resection. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2010;267(10):1569-72. doi: 10.1007/s00405-010-1245-8
5. Al-Sebeih KH, Bu-Abbas MH. Concha bullosa mucocoele and mucopyocele: a series of 4 cases. *Ear Nose Throat J*. 2014;93(1):28-31.
6. Cohen SD, Matthews BL. Large concha bullosa mucopyocele replacing the anterior ethmoid sinuses and contiguous with the frontal sinus. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2008;117(1):15-7. doi: 10.1177/000348940811700104
7. Bakheet E, Bakheet T. Prevalence of Anatomical Abnormalities of Nose & Paranasal Sinuses in Cases of Rhinogenic Headache Among Sohag University Students. *SMJ*. 2019;24(1):140-49. doi: 10.21608/SMJ.2019.16715.1056
8. Sari K, Gencer ZK, Kantekin Y. Concha Bullosa Mucopyocele: a Case Report. *Acta Medica (Hradec Kralove)*. 2015;58(4):147-9. doi: 10.14712/18059694.2016.8
9. Oakley G, Wiggins R, Error M, Meier J. Radiology Quiz Case 2: Diagnosis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2013;139(1):96. doi:10.1001/jamaoto.2013.1159b
10. Abdel-Aziz M. Mucopyocele of the concha bullosa presenting as a large nasal mass. *J Craniofac Surg*. 2011;22(3):1141-2. doi: 10.1097/SCS.0b013e318210b95a
11. Roozbahany NA, Nasri S. Nasal and paranasal sinus anatomical variations in patients with rhinogenic contact point headache. *Auris Nasus Larynx*. 2013;40(2):177-83. doi: 10.1016/j.anl.2012.07.007
12. Sollini G, Mazzola F, Iandelli A, Carobbio A, Barbieri A, Mora R, et al. Sino-Nasal Anatomical Variations in Rhinogenic Headache Pathogenesis. *J Craniofac Surg*. 2019;30(5):1503-505. doi: 10.1097/SCS.0000000000005239
13. Folic MM, Barac AM, Ugrinovic AB, Jotic AD, Trivic AS, Milovanovic JP, et al. Effectiveness of the Treatment of Rhinogenic Headache Caused by Intranasal Contact. *Ear Nose Throat J*. 2021;1455613211019706. doi: 10.1177/01455613211019706