Manejo interdisciplinario del nasoangiofibroma juvenil: embolización prequirúrgica, abordaje quirúrgico y análisis de la literatura

Interdisciplinary management of juvenile nasopharyngeal angiofibroma: presurgical embolization, surgical approach, and analysis of the literature

Roberto A. Peraza-McLiberty^{1*}, María C. Cortés-Benavides², Guadalupe M.L. Guerrero-Avendaño¹, Rocío Enríquez-García¹ y Luis E. Graniel-Palafox¹

¹Servicio de Radiología Vascular e Intervencionista, Hospital General de México; ²Hospital Infantil de México Federico Gómez. Ciudad de México, México

RESUMEN

Introducción: El angiofibroma nasofaríngeo juvenil, también conocido como nasoangiofibroma (NAF), es un tumor benigno, altamente vascularizado, en general observado en adolescentes varones y niños. Muestra un comportamiento muy agresivo debido a la invasión local y se asocia con varios síntomas. El NAF se origina del foramen esfenopalatino, causando epistaxis y obstrucción nasal. El abordaje quirúrgico es complicado debido a la gran cantidad de sangrado asociado. La embolización prequirúrgica disminuye en gran medida el volumen de sangrado y facilita la extirpación del tumor.

Objetivo: Exponer los datos de sangrado, tiempo quirúrgico, tiempo de recuperación y complicaciones del procedimiento, y describir la técnica de embolización.

Método: Se captaron 49 pacientes, con una edad media de 15 años, todos varones, que fueron manejados con embolización y tratamiento quirúrgico convencional.

Resultados: La pérdida media de sangre fue de 1,400 ml, menos que lo reportado en la literatura mundial con procedimientos sin embolización previa; el tiempo de recuperación fue menor y solo se reportó una complicación en los 49 pacientes tratados.

Correspondencia:

*Roberto Alejandro Peraza-McLiberty
E-mail: peraza.mcliberty@gmail.com

Recibido: 22-12-2017
Aceptado: 24-02-2018

DOI: 10.24875/ARM.M18000001
Disponible en internet: 27-04-2018

1665-2118/©2018 Sociedad Mexicana de Radiología e Imagen, AC. Publicado por Permayer México SA de CV. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Conclusiones: El manejo conjunto de los tumores nasofaríngeos con embolización selectiva y posteriormente manejo quirúrgico ofrece mejores resultados en cuanto a sangrado, tiempo de recuperación y riesgo de complicaciones.

Palabras clave: Angiofibroma. Embolización. Terapéutica. Epistaxis.

ABSTRACT

Introduction: Juvenile nasopharyngeal angiofibroma (JNA), also called nasopharyngeal angiofibroma, is a benign, highly vascularized tumor, usually seen in male adolescents and boys. It shows highly aggressive behavior due to local invasion and is associated with several symptoms. JNA originates in the sphenopalatine foramen, causing nosebleed and nasal obstruction. The surgical approach is complicated due to the large volume of associated bleeding. Presurgical embolization largely reduces the volume of bleeding and facilitates extirpation of the tumor.

Objective: To present data on bleeding, surgical time, recovery time, and complications associated with the procedure and describe the embolization technique.

Methods: Forty-nine patients were included, who were managed with embolization and conventional surgical treatment. The subjects' mean age was 15 years, and all subjects were male.

Results: Mean blood loss was 1,400 ml, less than that reported in the global literature for surgery without prior embolization; recovery time was shorter and only one complication was reported in the 49 patients treated.

Conclusions: Joint management of nasopharyngeal tumors with selective embolization and subsequent surgical management offers better results in terms of bleeding and recovery time and minimizes the risk of complications.

Key words: Angiofibroma. Embolization. Therapeutic. Nosebleed.

INTRODUCCIÓN

El nasofibrofibroma (NAF) juvenil es un tumor benigno que se desarrolla y disemina en la región nasal y nasofaríngea, y aunque histológicamente no es maligno, sí presenta agresividad local en las estructuras anatómicas circundantes, provocando con mucha

frecuencia epistaxis y disosmia¹⁻⁵. Se presenta casi exclusivamente en hombres adolescentes, y en general se considera que equivale al 1% de todos los tumores de la cabeza y el cuello⁶⁻¹¹.

El tumor invade la fosa infratemporal, el etmoides, la región orbitaria y el esfenoides en el 90% de los casos. Del esfenoides, se ha

reportado la extensión del tumor al cerebro en más del 10%¹²⁻²⁰. El diagnóstico presuntivo es de capital importancia, basándose principalmente en el interrogatorio y el examen clínico. La tomografía computada (Fig. 1) y la imagen por resonancia magnética (Fig. 2) permiten establecer la extensión tumoral, su patrón de diseminación y la planeación de abordajes quirúrgicos²¹⁻²⁶. A partir de estas, han surgido múltiples clasificaciones, aunque las más usadas son las de Fisch y Chandler, esta última sumamente usada en México^{2,5,9,15,21,27-32}.

En cuanto al tratamiento, se menciona el uso de hormonas (estrógeno, testosterona), radioterapia, quimioterapia a base de doxorubicina y dacarbacina, y recientemente el uso de embolización.

La embolización (Fig. 3) disminuye el aporte sanguíneo del tumor, logrando disminuir el volumen de la masa y las pérdidas sanguíneas transquirúrgicas.

La mayoría de los autores coinciden en que la cirugía (Fig. 4) constituye el tratamiento de elección, y la vía depende del estadio clínico y del estado general del paciente³². En los últimos años se ha optado por combinar tanto técnicas convencionales como endoscópicas.

Si bien el diagnóstico y el tratamiento del NAF juvenil no es nuevo, el tratamiento conjunto por radiología intervencionista y otorrinolaringología pediátrica en México sí lo es, y al momento no existen estudios de ámbito nacional en los cuales se realice una revisión del protocolo de atención, los abordajes intervencionistas y quirúrgicos, ni las ventajas y posibles complicaciones de esta

FIGURA 1. Tomografía computada con contraste intravenoso en fase arterial, en plano axial, con corte a nivel de la nasofaringe, en la que se observa la presencia de una masa tumoral hipercaptante, que invade y se extiende hacia la cavidad nasal derecha y parte de la cavidad orbitaria del mismo lado, así como a las celdillas etmoidales y el seno esfenoidal.

FIGURA 2. Imagen médica del encéfalo por resonancia magnética, en plano coronal, en secuencia T1 con saturación grasa y posterior a la inyección intravenosa de gadolinio, en la que se observa importante realce de la lesión tumoral (flecha blanca) que no solo invade las estructuras adyacentes de la nasofaringe, sino que se extiende cefálicamente hacia la fosa cerebral media derecha.

FIGURA 3. Angiografía de la arteria carótida externa izquierda, posterior a la embolización del tumor, en la que se observa su desvascularización, con «muñón» arterial en el segundo segmento de la arteria maxilar interna.

atención conjunta. El objetivo general de este estudio fue determinar el volumen de sangrado transquirúrgico, posterior al procedimiento de embolización de NAF juveniles, así como describir otros hallazgos asociados a este procedimiento, el cual es una terapéutica alternativa coadyuvante al procedimiento quirúrgico; además, se comentan la técnica de embolización, la técnica y el abordaje quirúrgicos, el tiempo quirúrgico, el volumen de sangrado intraoperatorio y la necesidad de empaquetamiento nasal posterior a la cirugía, así como el tiempo de hospitalización y una breve reseña de las complicaciones inmediatas.

MÉTODO

Analizamos 49 pacientes pediátricos con diagnóstico de NAF que fueron embolizados previamente a la cirugía por el servicio

FIGURA 4. Vista intraoperatoria endoscópica de un tumor benigno en la nasofaringe.

de otorrinolaringología pediátrica entre 2016 y 2017. Los criterios de inclusión fueron ser pacientes pediátricos con diagnóstico de NAF, atendidos en conjunto por otorrinolaringología pediátrica y radiología vascular e intervencionista, con tratamiento entre enero de 2016 y noviembre de 2017. Se excluyeron aquellos que fueron operados en este periodo mencionado, pero que no hubieran sido embolizados previo a la cirugía, y se eliminaron los que no contaban con el expediente completo. Las variables incluidas fueron edad, sexo, síntomas, estadio del tumor, técnica de embolización, variantes anatómicas, técnica y abordaje quirúrgico, duración de la cirugía, volumen de sangrado intraoperatorio, necesidad de empaquetamiento nasal posterior a la cirugía, tiempo de hospitalización, complicaciones inmediatas y tardías, recurrencia y pinzamiento de la arteria carótida externa durante la cirugía. Todos los pacientes fueron clasificados radiológicamente y quirúrgicamente de acuerdo con clasificaciones pertinentes a cada especialidad médica. Al final del periodo de captación, incluimos

49 pacientes. Los resultados se analizaron con métodos de estadística básica (moda, media, mediana y prueba t de Student para grupos con varianza diferente). Se presentan los resultados en forma de gráficos y tablas.

Todas las embolizaciones fueron completadas en una sola sesión. Se realizaron por radiólogos intervencionistas, dos de ellos con más de 10 años de experiencia y uno con 5 años de experiencia, además de los *fellows* de intervencionismo. Para este procedimiento se realizó acceso de la arteria femoral derecha por vía percutánea en todos los pacientes. Previo a la embolización, se realizaron angiografías de las carótidas internas y externas (Fig. 5) para delimitar arterias nutricias, venas drenantes y anastomosis extracraneales a intracraneales.

Las embolizaciones se llevaron a cabo con una combinación de espuma de gelatina tisular porcina (Gelfoam®, Pfizer) y aceite etiodizado (Lipiodol Ultra-Fluid®, Guerbet) o partículas de polivinil alcohol de 300-500 μm . Los procedimientos se realizaron bajo anestesia general por el servicio de anestesiología del Hospital Infantil de México. Una vez logrado el acceso a la arteria femoral común derecha, se introducía un catéter Head Hunter Hinck 5F hasta la arteria carótida externa, y dependiendo de la complejidad del árbol arterial se podía utilizar un microcatéter con microguía tipo Progreat® (Terumo) de 150 cm de largo hasta las arterias nutricias. Se realizaron angiografías a través del microcatéter para valorar el grado de vascularidad del tumor y para detectar anastomosis potencialmente peligrosas. Se inició la introducción del agente embolizante guiada por una máscara mapa (*road map*) para asegurarse de que el agente embolizante permanecía dentro de los confines del

FIGURA 5. Angiografía selectiva de la arteria maxilar interna izquierda, en fase tisular, en la que se observan el tamaño del tumor y su aporte vascular.

tinte vascular tumoral. Al finalizar, se realizó una arteriografía para valorar el grado de desvascularización del tumor (Fig. 6), seguido de una arteriografía cerebral para asegurar que no ocurrió embolización inadvertida de la vasculatura cerebral.

RESULTADOS

La edad media de los pacientes fue de 15 años, con un rango de 8 (Chandler II) a 17 años (Chandler III). Todos los pacientes eran varones y todos tenían los síntomas de obstrucción nasal progresiva y epistaxis recurrente. De los 49 pacientes, 28 fueron clasificados como tipo II de la clasificación de Chandler y 21 como Chandler III (Fig. 7). De este total, 15 pacientes fueron intervenidos tanto con embolización tumoral como con resección quirúrgica

FIGURA 6. Angiografía de la arteria maxilar interna izquierda, de control posterior a la embolización completa del tumor nasofaríngeo.

por primera vez, mientras que 34 fueron atendidos por recidiva en segunda ocasión (Fig. 8). La técnica quirúrgica en todos los pacientes se basó en las clasificaciones de Chandler. De los 49 pacientes, 21 tuvieron abordajes convencionales (Lefort I) y 28 tuvieron abordajes combinados convencionales y endoscópico (Fig. 9). De los 28 pacientes que fueron intervenidos por cirugía endoscópica y convencional, el tiempo medio de operación fue de 132 minutos, mientras que en el grupo de abordaje convencional el tiempo fue de 136 minutos (Fig. 10 y Tabla 1).

La pérdida media de sangre fue de 1,400 ml para el grupo de abordaje convencional y endoscópico, y de 933 ml para el abordaje convencional único (Fig. 11); ninguno requirió la transfusión de productos sanguíneos. Todos los pacientes fueron manejados con

FIGURA 7. Número de pacientes de acuerdo con la clasificación de su tumor por el grado de Chandler.

FIGURA 8. Tiempo de atención de cada paciente, en cuanto al evento: primera vez o subsecuente.

FIGURA 9. Tipo de abordaje quirúrgico: el convencional se basó en la técnica de Lefort tipo I, mientras que en el abordaje combinado se utilizó el abordaje Lefort I más la técnica endoscópica.

taponamiento nasal posquirúrgico, de los cuales siete fueron con gasa y el resto con una combinación de espuma de gelatina tisular (Gelfoam®) y malla hemostática de celulosa oxidada (Surgicel®, Johnson & Johnson).

Al realizar el análisis estadístico comparativo con prueba t de Student para dos muestras con varianzas desiguales, podemos observar que existe una diferencia significativa en cuanto a la cantidad de sangra perdida, siendo mayor en el grupo de abordaje quirúrgico combinado Lefort I más técnica endoscópica (Tabla 2).

En cuanto al tiempo de estancia hospitalaria posquirúrgica, el tiempo medio fue de 7.2 días, siendo lo mínimo 6 días y lo máximo 8 días; de esto, hasta 1.2 días fueron en observación de la unidad de terapia intensiva pediátrica.

En cuanto a las complicaciones registradas, ocho pacientes presentaron hipotensión secundaria a la pérdida hemática, mientras que 15 presentaron hipertensión arterial sistémica posquirúrgica (Fig. 12).

DISCUSIÓN

La literatura reporta que los NAJ se presentan casi exclusivamente en varones entre 14 y 25 años. De manera similar, la edad media de nuestros pacientes fue de 15 años y todos eran varones³¹.

Existen muchos métodos para estadificar los tumores, los cuales sirven a su vez para elegir el tratamiento adecuado. Estas clasificaciones se basan en diferentes métodos de examen,

FIGURA 10. Como se puede observar claramente, la cirugía se extendió por más tiempo en el grupo de abordaje convencional que en el de técnica combinada.

TABLA 1. Análisis estadístico comparativo entre el tiempo quirúrgico de la técnica convencional y el de la técnica combinada

	Técnica convencional	Técnica combinada
Media	136.6666667	132.5
Varianza	303.3333333	330.555556
Observaciones	21	28
Diferencia hipotética de las medias	0	
Grados de libertad	44	
Estadístico t	0.813250061	
P (T ≤ t) una cola	0.210226861	
Valor crítico de t (una cola)	1.680229977	
P (T ≤ t) dos colas	0.420453721	
Valor crítico de t (dos colas)	2.015367574

FIGURA 11. Cantidad de sangrado transquirúrgico.

TABLA 2. Análisis estadístico comparativo de la cantidad de sangre perdida según la técnica quirúrgica utilizada. Existe una diferencia significativa ($p < 0.05$), siendo que el abordaje Lefort I predispone a menor sangrado en comparación con la técnica combinada

	Abordaje convencional	Abordaje combinado
Media	933.333333 ml	1,400 ml
Varianza	9,333.33333 ml	471,851.852 ml
Observaciones	21	28
Diferencia hipotética de las medias	0	
Grados de libertad	28	
Estadístico t	-3.5483808	
P ($T \leq t$) una cola	0.00069488	
Valor crítico de t (una cola)	1.70113093	
P ($T \leq t$) dos colas	0.00138977	
Valor crítico de t (dos colas)	2.04840714

FIGURA 12. Número de complicaciones tras el evento quirúrgico. HAS posquirúrgica: hipertensión arterial posquirúrgica.

como son las técnicas de imagen médica y la rinoendoscopia. Estas técnicas de imagen médica sirven para establecer la extensión del tumor y su patrón de diseminación, y para realizar una planeación quirúrgica adecuada. Nuestros pacientes fueron clasificados de

FIGURA 13. Fotografía de campo quirúrgico, en la que se observa el abordaje clásico de tipo Lefort para acceder a la nasofaringe y poder realizar la resección del tumor.

acuerdo con el sistema de Chandler, que es uno de los más usados en México.

Varios abordajes quirúrgicos se han utilizado para la resección de los NAJ, incluidos el transnasal, el transpalatino, el transcigomático y el transcervical, además de la rinotomía lateral (Fig. 13).

Además, cada vez es más frecuente el uso de la resección endoscópica. En el caso de nuestra institución, el abordaje más frecuentemente utilizado fue el Lefort I (Fig. 14), algunas veces apoyándose de la endoscopia, aunque esta demostró aumentar el sangrado por la manipulación. En la literatura se refiere menor sangrado con la endoscopia, aunque con mayor tiempo quirúrgico¹.

Numerosos estudios demuestran el beneficio de la embolización arterial preoperatoria (Fig. 15) para el control del sangrado

FIGURA 14. Disección de la nasofaringe en planos profundos.

FIGURA 15. Colocación de la vaina introductora vascular con válvula hemostática 5F para el acceso vascular y la embolización del tumor nasofaríngeo.

transquirúrgico^{13,32}. En el caso de nuestra investigación, la media de sangrado fue de 1,400 ml con el abordaje combinado y de unos

FIGURA 16. Pieza quirúrgica de tumor nasofaríngeo, resecada con manejo interdisciplinario (embolización prequirúrgica y abordaje tradicional).

900 ml con el abordaje convencional. Idealmente, el tiempo entre el término de la embolización y el procedimiento quirúrgico debe ser tan corto como 24 horas¹³.

Aunque la embolización arterial preoperatoria aún no se realiza de manera sistemática, existe controversia en cuanto si realizarla disminuye el sangrado normalmente reportado. En nuestro caso y en nuestra experiencia, las pérdidas sanguíneas pueden elevarse hasta 2,500 ml, por lo que con la embolización tumoral las posibilidades de éxito aumentan (Fig. 16)³².

Ninguno de nuestros pacientes tuvo complicaciones por la embolización. Según reportaron los cirujanos responsables, existe un

mejor control del sangrado y mayor facilidad de disección tumoral.

CONCLUSIONES

Los pacientes con embolización prequirúrgica de los NAJ presentaron menor pérdida de sangre en comparación con lo reportado en la literatura. Aunque paradójico, se encontró que los pacientes abordados con doble técnica (convencional Lefort I y endoscópica) presentaron mayor sangrado que el grupo con abordaje convencional único. Esto ha sido reportado en otros estudios. El tiempo de recuperación fue igual en ambos grupos, y la presencia de complicaciones no tuvo una diferencia significativa.

BIBLIOGRAFÍA

- Mena C, Abogado R, Klessen Z. Nuestra experiencia en los últimos 10 años y revisión de la Literatura. *An ORL Mex.* 2009;69:243-8.
- Gaeta M. Nasoangiofibroma juvenil, frecuencia. Incidencia de acuerdo a grupo sanguíneo. *An ORL Mex.* 2005;50:17-21.
- Wylie J, Slevin N, Johnson R. Intracranial juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Clin Oncol.* 1998;10:330-3.
- Sánchez de Guzmán G. Experiencia en el manejo de nasoangiofibroma juvenil en el Instituto Nacional de Cancerología. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999;27:653-6.
- Sociedade Brasileira de Otorrinolaringología. Tratado de otorrinolaringología. Brasília: Roca; 2003. p. 701-11.
- Dillard D, Cohen C, Muller S, Del Gaudio J, Reichman O, Parrish B, et al. Immunolocalization of activated transforming growth factor 1 in juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;126:723-5.
- Mcafee W, Morris C, Andur R, Werning J, Mendenhall W. Definitive radiotherapy for juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Am J Clin Oncol.* 2006;29:168-70.
- Pryor S, Moore E, Kasperbauer J. Endoscopic versus traditional approaches for excision of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Laryngoscope.* 2005;115:1201-7.
- Carvalho Júnior R, Mendonça C, D'Ávila J, Santos A, Jesus E, Sobral P. Abordagem endoscópica no tratamento do nasoangiofibroma: relato de caso. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2005;71:4-19.
- Bernal-Sprekelsen M, Alobid I, Guilemany JM. Angiofibroma juvenil. *Acta Otorrinolaryngol.* 2007;58:84-95.
- Hervé S, Portier F, Chapot R. Fibroma nasofaríngeo. *Encyclopedie Medico-Chirurgicale-Otorrinolaringologia.* 2001;20:10.
- Luiz ACR, Romualdo SLT, Fava AS. Angiofibroma nasofaríngeo: revisão de literatura. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2003;69:394-403.
- Nicolai P, Berlucchi M, Tomenzoli D. Endoscopic surgery for juvenile angiofibroma: when and how. *Laryngoscope.* 2003;113:775-82.
- Maurice M, Milad M. Pathogenesis of juvenile nasopharyngeal fibroma (a new concept). *Braz J Otorhinolaryngol.* 1981;95:1121-6.
- Andrade NA, Pinto JA, Nóbrega MO. Exclusively endoscopic surgery for juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2007;137:492-6.
- Gusso JL, Souza RP, Rapoport A. Nasoangiofibroma juvenil: concordância interobservadores no estadiamento por tomografia computadorizada. *Radiol Bras.* 2001;34:207-11.
- Chandler JR. Nasopharyngeal angiofibromas: staging and management. *Ann Otorhino Laryngol.* 1984;93:322.
- Sessions RB. Radiographic staging of juvenile angiofibroma. *Head Neck Surg.* 1981;3:279.
- Radkowski D, McGill T, Healy GB, et al. Angiofibroma: changes in staging and treatment. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1996;112:122-9.
- Sivanandan E, Willard F. Benign and malignant tumors of the nasopharynx. En: Cummings CW, Haughey BH, Thomas JR, Harker LA, editores. *Cummings Otolaryngology: head and neck surgery.* Philadelphia: Mosby; 2005. p. 1669-84.
- Andrews JC, Fisch U, Valavanis A, Aeppli U, Makek MS. The surgical management of extensive nasopharyngeal angiofibromas with the infra-temporal fossa approach. *Laryngoscope.* 1989;99:429-37.
- Sennes LU, Butugan O, Sánchez TG, Bento RF, Tsuji DH. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: the routes of invasion. *Rhinology.* 2001;41:235-40.
- Onerci TM, Ogretmenoglu S, Yetiser S. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: a revised staging system. *Rhinology.* 2006;44:39-45.
- Sennes LU, Butugan O, Sánchez TG, Bento RF, Tsuji DH. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: the routes of invasion. *Rhinology.* 2003;41:235-40.
- Howard D, Lloyd G, Lund V. Recurrence and its avoidance in juvenile angiofibroma. *Laryngoscope.* 2001;111:1509.
- Freihofer HPM. The timing of facial osteotomies in children and adolescents. *Clin Plast Surg.* 1982;9:445.
- Yiotakis I, Eleftheriadou D, Davilis D, Giotakis E, Ferekidou E, Korres S, et al. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma stages I and II: a comparative study of surgical approaches. *Int J Pediatric Otorhino.* 2008;72:793-800.
- Lloyd G, Howard D, Phelps P, Cheesman A. Juvenile angiofibroma: the lessons of 20 years of modern imaging. *J Laryngol Otol.* 1999;113:127-34.
- Lin KY. An experimental study on the effect of rigid fixation on the developing craniofacial skeleton. *Plast Reconstruct Surg.* 1991;87:229.
- Martins MBB, De Lima FVF, Mendonça CA, De Jesus EPF, Santos ACG, Barreto VMP, et al. Nasopharyngeal angiofibroma: our experience and literature review. *Int Arch Otorhinolaryngol.* 2013;17:14-9.
- Katsiotis P, Tzortzis G, Karaminis C. Transcatheter arterial embolization in nasopharyngeal angiofibroma. *Acta Radiol Diagn.* 1979;20:433-8.
- Gay I, Elidan J, Gordon R. Oronasal fistula, a possible complication of preoperative embolization in the management of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *J Laryngol Otol.* 1983;97:651-6.