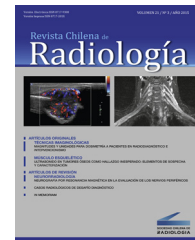




Revista Chilena de
Radiología

www.elsevier.es/rchira



ORIGINAL

Metástasis durales: una forma infrecuente de recurrencia en tumores nasosinuales malignos



Raul Valenzuela^{a,*}, Lawrence Ginsberg^b, Deborah Shatzkes^c, Michelle Michel^d, Laurie Loevner^e, Ehab Hanna^b, Andres Tavera^f y Roy Riascos^g

^a Center of Advanced Imaging Processing, The University of Texas Health Science Center at Houston, Houston, TX, Estados Unidos

^b Department of Head and Neck Surgery, The University of Texas MD Anderson Cancer Center, Houston, TX, Estados Unidos

^c Hofstra Northwell School of Medicine, Nueva York, NY, Estados Unidos

^d Division of Diagnostic Radiology, Medical College of Wisconsin, Milwaukee, WI, Estados Unidos

^e Department of Radiology, University of Pennsylvania, Philadelphia, PA, Estados Unidos

^f Universidad El Bosque, Bogotá, Colombia

^g Diagnostic and Interventional Imaging, The University of Texas Health Science Center at Houston, Houston, TX, Estados Unidos

Recibido el 22 de octubre de 2016; aceptado el 28 de noviembre de 2016

Disponible en Internet el 21 de diciembre de 2016

PALABRAS CLAVE

Metástasis durales;
Tumores malignos
nasosinuales;
Tumores de cabeza
y cuello

Resumen Presentamos las metástasis durales como forma inusual de diseminación de tumores nasosinuales malignos tratados; se revisan 20 casos diagnosticados durante el seguimiento imagenológico a un grupo tratado con resección craneofacial anterior. Evaluamos metástasis durales en 12 carcinomas nasosinuales indiferenciados, 7 neuroblastomas olfatorios y un carcinoma adenoquístico. En neuroblastomas olfatorios aparecieron metástasis durales en promedio 7,3 años postratamiento. La distancia máxima del tumor a la metástasis fue de 14 cm para neuroblastoma olfatorio y de 4,3 cm para carcinoma nasosinusal indiferenciado. Observamos metástasis durales en los agujeros de trepanación en el 50% de los carcinomas nasosinuales indiferenciados y en el 29% de los neuroblastomas olfatorios. Las metástasis durales presentaron patrón nodular (60%), multinodular (10%), quístico (15%) y en placa (15%). Proponemos un mecanismo venoso local de diseminación relacionado a disrupción tumoral o quirúrgica de la fosa craneal anterior. El seguimiento a largo plazo con inclusión craneal estaría indicado por la posible presentación tardía y distante de metástasis durales.

Publicado por Elsevier España, S.L.U. en nombre de SOCHRADI. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: raul.f.valenzuela@uth.tmc.edu (R. Valenzuela).

KEYWORDS

Dural metastases;
Sinonasal
malignancies;
Head and neck
tumours

Dural metastasis: An uncommon form of recurrence in malignant sinonasal tumours

Abstract Dural metastases are an unusual form of spread in treated sinonasal malignancies. An analysis is presented of 20 cases of dural metastases diagnosed during imaging follow-up in a selection of cases in which anterior craniofacial resection was performed. They included 12 undifferentiated sinonasal carcinomas, 7 olfactory neuroblastomas, and 1 adenoid cystic carcinoma case. Dural metastases appeared on an average of 7.3 years after treatment in olfactory neuroblastoma. The maximum distance from malignancy to dural metastases was 14 cm for olfactory neuroblastoma, and 4.3 cm for undifferentiated sinonasal carcinoma. Dural metastases in the Burr holes were observed in 50% of undifferentiated sinonasal carcinoma, and 29% of olfactory neuroblastomas. Dural metastases presented as a nodular (60%), multinodular (10%), cystic (15%), and plaque (15%) pattern. These are suggestive of a local venous spread mechanism related to tumour rupture during surgery of anterior cranial fossa. Long-term follow-up with cranial inclusion would be indicated, given the possible late and distant presentation of dural metastases.

Published by Elsevier España, S.L.U. on behalf of SOCHRAI. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

Los carcinomas de la región nasosinusal representan una pequeña proporción de todas las neoplasias malignas, correspondientes al 0,2-0,8% de los tumores malignos corporales y al 3% de los de cabeza y cuello¹. El 80% de ellos corresponden al carcinoma de células escamosas, y los adenocarcinomas y carcinomas adenoideos quísticos (*adenoid cystic carcinoma* [ACCa]) representan el 10%². Se incluyen en el grupo de neoplasias menos frecuentes: el neuroblastoma olfatorio (*olfactory neuroblastoma* [ONB]) y los carcinomas nasosinuales indiferenciados (*sinonasal undifferentiated carcinoma* [SNUC]). Tanto los ONB como los SNUC tienden a ocurrir en la región naso-etmoidal². El SNUC es un tumor raro y extremadamente maligno que se caracteriza por un rápido crecimiento, tendencia a recidivar local-regionalmente y a producir metástasis a distancia, con un muy pobre pronóstico^{3,4}. El ONB es un tumor que, aunque es bien conocido, es infrecuente y se origina en la mucosa olfatoria, en la porción superior de la cavidad nasal, en la región etmoidal y en los cornetes superiores, correspondiendo al 3-6% de los tumores intranasales^{5,6}. Este tumor, en estadios avanzados, invade el piso de la fosa craneana anterior⁵.

El ONB ha sido descrito asociado a recurrencias fuera del campo terapéutico y puede también recidivar localmente o comprometer los vasos linfáticos locales-regionales^{5,7}. A pesar de estas características particulares y del uso de técnicas inmunohistoquímicas, la diferenciación entre SNUC y ONB puede ser difícil³. Típicamente los SNUC y los ONB son tratados con resección craneofacial anterior y radioterapia^{3,5}. El ACCa es un tumor de lento crecimiento y localmente agresivo, presentándose usualmente en asociación con metástasis a distancia².

Las metástasis durales pueden ocurrir como consecuencia de la extensión directa desde las metástasis hematógenas óseas de la calota o de la base del cráneo⁸. Con la excepción de un caso de metástasis dural, en asociación a un ONB, reportado por Bogucki et al.⁹; un caso de metástasis

intracerebral de un teratoma nasosinusal reportado por Shorter et al.¹⁰, y un caso de ONB, por Tamase et al.⁷, no disponemos de antecedentes de ninguna serie publicada de metástasis durales relacionada a neoplasias nasosinuales malignas.

De esta forma, se plantean los objetivos de presentar las metástasis durales como una forma inusual de diseminación de tumores nasosinuales malignos infrecuentes y mostrar las diferentes presentaciones imagenológicas de las metástasis durales provenientes de tumores malignos primarios nasosinuales tales como ONB, SNUC y ACCa. Si bien no es el objetivo central de este reporte, presentamos y proponemos un posible mecanismo de diseminación local-regional involucrado en la presentación de este fenómeno.

Materiales y métodos

En este artículo se presenta una revisión retrospectiva de 20 casos de metástasis durales diagnosticados, mediante imagenología, durante el seguimiento postoperatorio de rutina de dichos pacientes. Los casos corresponden a un grupo de tumores malignos nasosinuales/etmoidales infrecuentes que fueron tratados por resección craneofacial anterior. Quince de los pacientes fueron tratados y posteriormente controlados en el MD Anderson Cancer Center en Houston (Texas) entre los años 1973 y 2008 (se incluyen 8 casos de SNUC, 6 de ONB y uno de ACCa), y se añadieron 5 pacientes procedentes de otras instituciones (se incluyen 4 casos de SNUC y uno de ONB). El rango de edad de los pacientes fue de 29 a 78 años, con una media de 58 años. El 59% de ellos eran de sexo masculino.

Con la sola excepción de un caso de SNUC, los pacientes (95%) fueron tratados de forma estandarizada, con una combinación de resección craneofacial anterior y radioterapia. Dieciocho de los 20 pacientes (90%) mostraron, en el estudio pre-quirúrgico, violación de la integridad del piso de la fosa craneal anterior por el tumor primario.

El seguimiento de los pacientes incluyó tomografía axial multicorte de cabeza y cuello y resonancia magnética (RM),

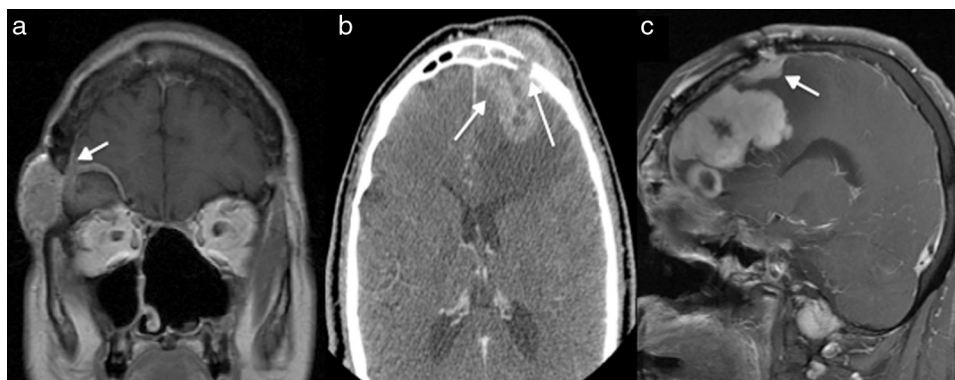


Figura 1 Metástasis dures en los agujeros de trepanación (flechas): a) imagen coronal T1 post gadolinio: DM por neuroblastoma olfatorio; b) imagen axial de TC con contraste: DM por carcinoma nasosinusal indiferenciado; c) imagen sagital T1 post gadolinio: DM de carcinoma adenoideo quístico.

que incluye secuencias T1WI, T2WI y secuencias posgadolinio T1WI con saturación de grasa espectral. Todas las imágenes fueron interpretadas por un radiólogo experimentado de cabeza y cuello. Para el diagnóstico se hizo una determinación de la presencia de metástasis dures en todos los casos basándose en la presencia del crecimiento de una masa sólida *de novo* con implantación dural en las imágenes de seguimiento postoperatorio. La confirmación por patología estuvo disponible en 10 de los casos (50%).

Resultados

Aspectos clínicos

Al momento del análisis, 6 de los casos de SNUC y el único caso de ACCa habían fallecido, mientras que todos los casos de ONB se encontraban vivos. Se halló que en promedio las metástasis dures aparecieron a los 7,3, 0,5 y 3 años postratamiento para ONB, SNUC y ACCa, respectivamente, y que el número promedio de metástasis dures fue de 2 para ONB y uno para SNUC. Al momento del diagnóstico de metástasis dures el 57% de los ONB y el 33% de los SNUC presentaban recurrencia local concomitante. Paralelamente, 6 pacientes (30% de la serie; 57% de ONB y 25% de SNUC) presentaban metástasis ganglionares cervicales. Metástasis hematógenas fueron registradas en 3 pacientes (25% de la serie) de SNUC (2 pulmón, un hueso) y un paciente de ACCa. El tiempo promedio de seguimiento después del diagnóstico de metástasis dures fue de 5 años para ACCa, 3 años para ONB y de solo 0,7 años para SNUC.

Ubicación

Todos los casos presentaron extensión intracraneana en la fosa anterior, observada en el período preterapéutico en 18 (90%) de los casos, lo que incluye: 11 SNUC, 6 ONB y un ACCa, con la excepción de un SNUC que se originó en el seno frontal. Las metástasis dures se encontraron en el margen del componente bifrontal de la craneotomía de la resección craneofacial anterior, específicamente en los agujeros de trepanación en 9 (45%) de los casos (lo que corresponde al 29% de los ONB, al 50% de los SNUC y a un caso de ACCa)

(fig. 1). El 95% de los casos presentaron violación de la integridad de la base de la fosa craneana anterior, ya sea por la resección craneofacial anterior o por el propio tumor; solamente un caso de SNUC no presentó violación tumoral ni quirúrgica.

Morfología

El tamaño máximo de las metástasis dures fue de 2,5 cm para ONB, 4,3 cm para SNUC y 2,5 cm para ACCa. La distancia máxima de la metástasis dural al sitio primario fue de 14 cm para ONB, 5,8 cm para SNUC y 4 cm para ACCa. El signo de la «cola dural», comúnmente reconocido en meningiomas y definido como la presencia de engrosamiento marginal a una masa dural⁸, fue observado en todas las metástasis dures. Como resultado, 2 casos (uno de ONB y uno de ACCa) fueron reportados erróneamente como meningiomas por el radiólogo interpretador (fig. 2).

Patrones

Se observaron 4 patrones morfológicos de presentación en las metástasis dures: nodular, quístico, multinodular y en placa. El patrón nodular de metástasis dural se definió como la presencia de una masa individual, diferenciada, de base dural; se observó en el 60% del total de los casos y representaba la mayoría de las metástasis dures. La presencia de un componente que no muestra reforzamiento con contraste y que se correlaciona con alta señal en T2 recibió el nombre de patrón quístico, que corresponde a un subgrupo de la variedad nodular y que se caracteriza por una elevada señal de T2WI contenida en la metástasis dural, lo cual fue observado únicamente en 3 casos de ONB (43%), y no se observó en ninguno de los casos de SNUC ni ACCa. El patrón multinodular fue definido por la presencia de múltiples masas continuas de base dural y fue observado únicamente en 2 casos de SNUC. El patrón de placa se definió como un engrosamiento focal y lineal de la duramadre y se encontró en 3 casos de SNUC en el sitio perioperatorio y en la superficie dural del piso de la fosa craneal anterior; en los 3 casos precedió una futura recurrencia local (fig. 3).

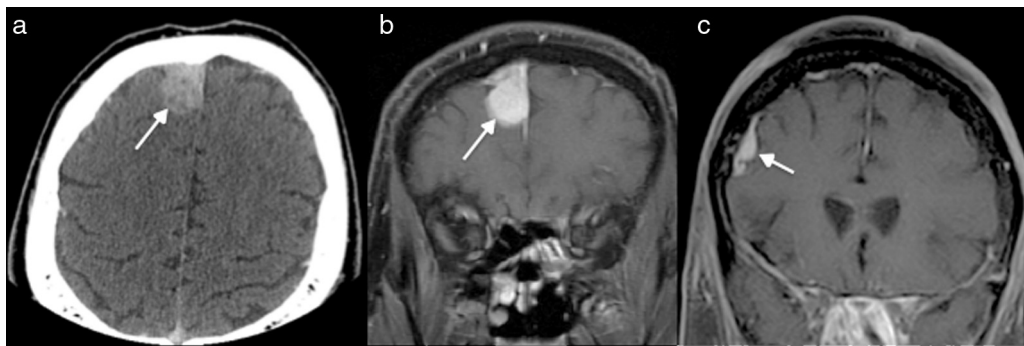


Figura 2 Casos de metástasis dures erróneamente diagnosticados como meningiomas (flechas): a) CT axial con contraste: metástasis dural en carcinoma adenoquístico; b) imagen coronal de RM T1 con gadolinio: metástasis dural adyacente al seno sagital superior (carcinoma adenoquístico); c) imagen coronal RM T1 con gadolinio: metástasis dural en neuroblastoma olfatorio.

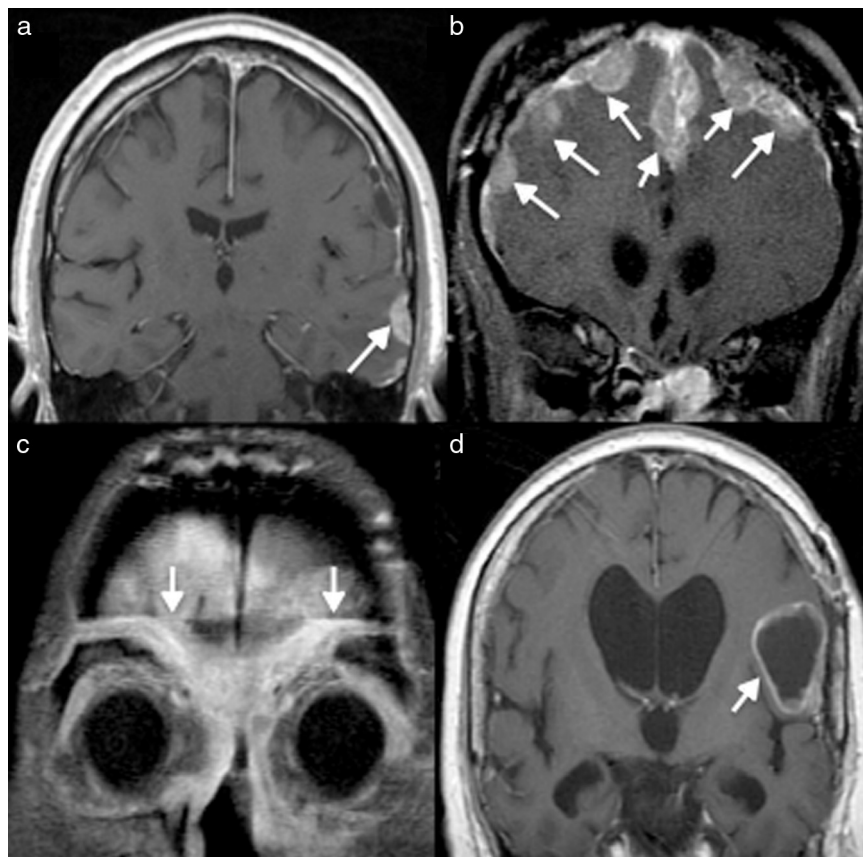


Figura 3 Ejemplos de los patrones de presentación de las metástasis dures (flechas); imágenes coronales T1 con gadolinio: a) metástasis dural nodular (neuroblastoma olfatorio); b) metástasis dural multinodular (carcinoma nasosinusal indiferenciado); c) metástasis dural en placa (carcinoma nasosinusal indiferenciado); d) metástasis dural quística (neuroblastoma olfatorio).

Discusión

La presencia de metástasis dures «quísticas» fue solamente observada en casos de ONB, por lo que podría corresponder a una característica específica de este tipo de tumor (fig. 4). Las metástasis dures en ONB mostraron una tendencia a ocurrir más tardíamente y más distantes que las que ocurren en SNUC y ACCa. La rápida progresión a la muerte y escasa sobrevida de los pacientes tratados por

SNUC confirma lo que es sabido sobre la conducta biológica de este tipo de tumores¹¹.

En el seguimiento imagenológico posquirúrgico es esperable encontrar reforzamiento dural reactivo, que es más evidente en el sitio de la craneotomía (resección craneofacial anterior); este reforzamiento pudo extenderse hasta la convexidad del mismo lado de la craneotomía, pero usualmente es un engrosamiento regular y delgado, sin elementos nodulares¹². La interpretación de la RM poscraneotomía

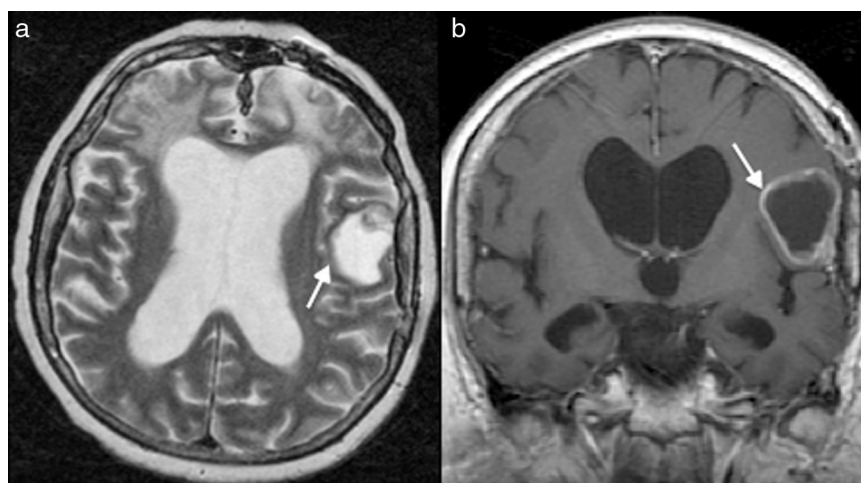


Figura 4 Metástasis dures de neuroblastoma olfatorio con patrón quístico (flechas): a) imagen axial T2; b) imagen coronal T1 con gadolinio.

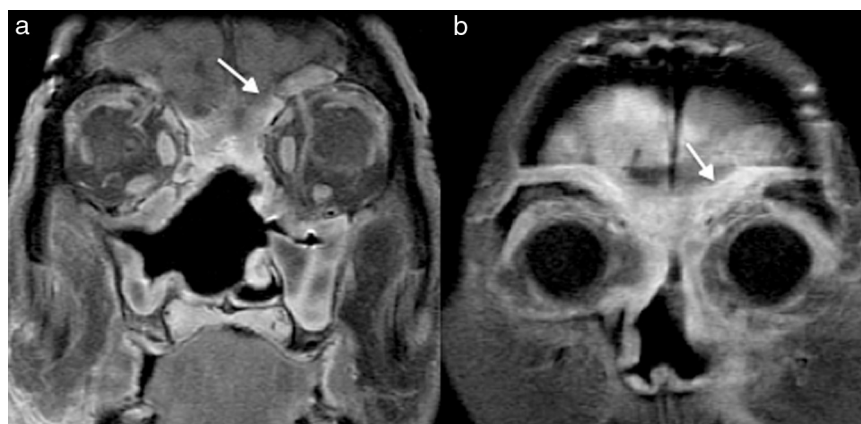


Figura 5 Imágenes de RM en T1 con gadolinio y saturación grasa: a) caso de carcinoma nasosinusal indiferenciado con realce de la duramadre, posquirúrgico (flecha); b) caso de carcinoma nasosinusal indiferenciado con metástasis dural con patrón en placa (flecha).

requiere familiaridad con su aspecto. La presencia de una metástasis dural tipo placa estuvo relacionada en todos los casos con recurrencia local temprana e inicialmente puede ser confundida con reforzamiento reactivo postoperatorio, dado que en el caso de recurrencia tumoral este tiende a ser más ondulado, grueso e irregular en comparación con el engrosamiento postoperatorio habitual¹² (fig. 5).

Típicamente las metástasis dures producen engrosamiento de la duramadre. El signo de la «cola dural» en RM, alguna vez considerado altamente sugerente de meningioma, es frecuentemente observado en las metástasis dures⁸. Esta característica puede inducir un error en la interpretación de los exámenes de seguimiento postoperatorio, lo que ocurrió en 2 casos de este estudio, a pesar de haber sido evaluados en un centro especializado en oncología, sugiriendo erróneamente la presencia de un meningioma. Por este motivo, el radiólogo debe tener en mente que las lesiones que puedan sugerir la presencia de meningioma deberán ser consideradas potenciales metástasis dures a menos que se pueda demostrar estabilidad en el tiempo por comparación con estudios secuenciales.

Adicionalmente, el especialista deberá estar entrenado para distinguir y reconocer el reforzamiento dural postoperatorio de metástasis dures en patrón de placa y la recurrencia temprana.

Para evitar falla en el diagnóstico y garantizar la recepción de terapia oportuna, los exámenes de seguimiento imagenológico de rutina deberán incluir siempre, en adición a la rutina de cabeza y cuello, al menos una secuencia postcontraste con cobertura completa de la bóveda craneana-cerebro, teniendo en consideración que estas formas de recurrencia pueden ocurrir remotamente (hasta 14 cm) respecto al área tumoral primaria en la base de cráneo anterior. Así mismo, dada la aparición tardía de algunos tipos de lesiones (como ONB a los 23 años), se recomienda un seguimiento más prolongado en el tiempo.

La aparición de metástasis dures distantes del sitio tumoral primario, en casos donde la integridad de la fosa craneal anterior ha sido violada —tanto por el tumor como por la cirugía—, plantea la inquietud de una posible relación causal en el desarrollo de metástasis dures, en donde la explicación de un mecanismo hematógeno o linfático parece

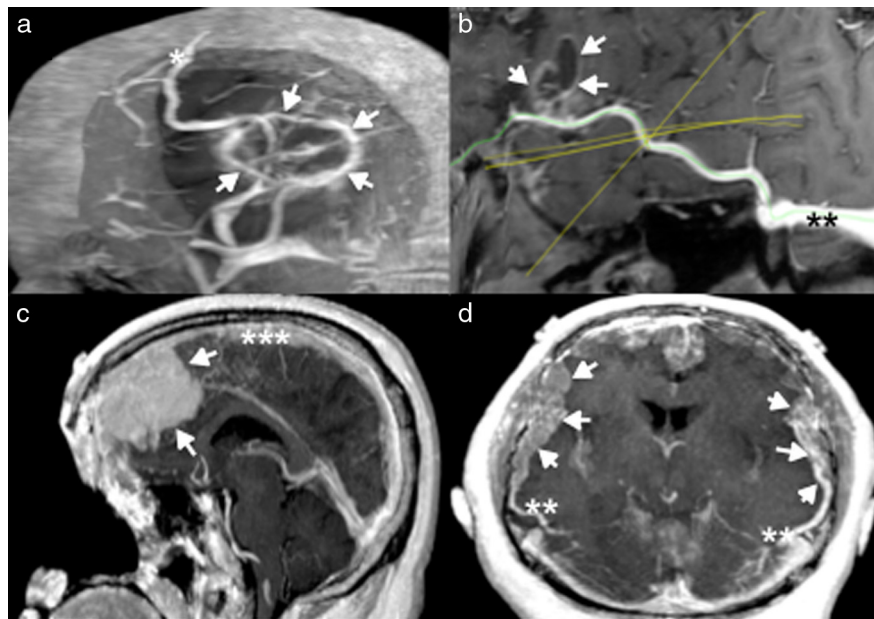


Figura 6 Reconstrucciones multiplanares MIP de secuencias volumétricas T1 con gadolinio: a) metástasis dural quística en neuroblastoma olfatorio (flechas) relacionada al trayecto de la vena de Trolard (*); b) metástasis dural quística en neuroblastoma olfatorio (flechas) relacionada al trayecto de la vena de Labbe (**); c) metástasis dural multinodular en carcinoma nasosinusal indiferenciado (flechas) relacionada al aspecto anterior del seno sagital superior (***); d) metástasis dural multinodular de carcinoma nasosinusal indiferenciado, bilateralmente relacionadas al trayecto de las venas de Labbe (**).

menos probable, dada la baja incidencia demostrada en este estudio de enfermedad a distancia (25% hematógena y 30% ganglionar). De esta manera surge la posibilidad de un *mecanismo de tipo local* en la siembra de células tumorales. Esta teoría plantea la posible importancia de estructuras anatómicas que pudieran servir de puente entre el área operatoria y el área de implantación metastásica dural. Dichas estructuras podrían ser afectadas directamente por la cirugía o por el tumor, como es el caso del sistema venoso dural. Proponemos entonces la posible participación del sistema venoso dural en la siembra de células tumorales en la duramadre desde el área tumoral primaria, en una forma análoga al rol que desempeña el plexo de Batson en la diseminación del cáncer de próstata hacia el sistema venoso lumbar^{10,12-14}. En nuestro estudio, la presencia de metástasis dures a nivel del borde de la resección craneofacial anterior en el 47% de los casos pudiera apoyar esta teoría, así como la ausencia de metástasis dures preoperatorias, la disrupción del piso de la fosa craneal anterior tumoral o quirúrgica en el 95% de los casos y la baja incidencia de metástasis dures lejanas (4 de 20 pacientes, 20%), sugiriendo que la duramadre, el hueso y el sistema venoso dural lesionados pudieran favorecer la implantación tumoral dural (fig. 6).

Desafía nuestra teoría la presencia de un caso de metástasis dural asociado a SNUC, en donde no ocurrió ninguna forma de violación quirúrgica o tumoral de la integridad de la fosa craneal anterior. Nuestra hipótesis permanece como una teoría que deberá ser sometida a evaluación y confrontada con futura evidencia patológica y experimental, no disponible en la actualidad.

Consideramos que respecto a la aparición de metástasis dures, la presente serie crea la noción sobre su potencial ocurrencia secundaria a la siembra perioperatoria, y

más importantemente plantea que sería una forma desconocida pero predecible de recurrencia tumoral posterior al tratamiento de algunas neoplasias malignas nasosinuales infrecuentes, tales como SNUC, ONB y ACCa, lo cual no ha sido reportado previamente en ninguna serie clínica.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Barnes L, Everson JW, Reichart P, Sidransky D, editores. *World Health Organization Classification of Tumors: Pathology and Genetics: Head and Neck Tumors*. Lyon: WHO Press; 2005.
2. Rankin SC. Imaging of malignant sinus tumours. *Imaging*. 2003;15:127-40.

3. Enepekides D. Sinonasal undifferentiated carcinoma: An update. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2005;13:222–5.
4. Lezzoni JC, Mills SE. “Undifferentiated” small round cell tumors of the sinonasal tract. *Am J Clin Pathol.* 2005;124: S110–21.
5. Hwang S-K, Pack S-H, Kim D-G. Olfactory neuroblastomas: Survival rate and prognostic factor. *J Neurooncol.* 2002;59:217–26.
6. Austin J, Cebrun H, Kershisnik M. Olfactory neuroblastoma and neuroendocrine carcinoma of the anterior carcinoma of the anterior skull base: Treatment results at the M.D. Anderson Cancer Center. *Skull Base Surg.* 1996;6:1–8.
7. Tamase A, Nakada M, Hasegawa M. Recurrent intracranial esthesioneuroblastoma outside the initial field of radiation with progressive dural and intra-orbital invasion. *Acta Neurochir.* 2004;146:179–82.
8. Laigle-Donadey F, Taillibert S, Mokhtari K. Dural metastases. *J Neurooncol.* 2005;75:57–61.
9. Bogucki J, Taraszewska A, Czernicki Z. Pure distant, leptomeningeal metastasis of esthesioneuro-epithelioma. *Acta Neurochir (Wien).* 2004;146:1043–5.
10. Shorter C, Nourbakhsh A, Dean M, Thomas-Ogunniyi J, Lian T, Guthikonda B. Intracerebral metastasis of sinonasal teratocarcinoma: A case report. *Skull Base.* 2010;20:393–6.
11. Lin EM, Sparano A, Spalding A, Eisbruch A, Worden FP, Heth J, et al. Sinonasal undifferentiated carcinoma: A 13-year experience at a single institution. *Skull Base.* 2010;20:61–7.
12. Ginsberg L. Contrast enhancement in meningeal and extra-axial disease. *Neuroimaging Clin N Am.* 1994;4:133–52.
13. Kleinschmidt-De Masters BK. Dural metastases. A retrospective surgical and autopsy series. *Arch Pathol Lab Med.* 2001;125:880–7.
14. Pfister S, Kleinschmidt-DeMasters BK. Dural metastases from prostatic adenocarcinoma. *J Urol Pathol.* 1995;3:119–27.