

Paranasal mantar topu enfeksiyonu: On beş olgu eşliğinde literatürün gözden geçirilmesi

Paranasal fungus ball infection: Review of the literature with 15 cases

İbrahim Ketenci¹, Yaşar Ünlü¹, Kerem Kökoğlu², Mehmet İlhan Şahin¹

¹Erciyes Üniversitesi, Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, Kayseri, Türkiye

²Develi Devlet Hastanesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Kliniği, Kayseri, Türkiye

ÖZ

Amaç: Bu çalışmada paranasal mantar topu literatürü 15 olgu eşliğinde gözden geçirildi.

Hastalar ve Yöntemler: Fonksiyonel endoskopik sinüs cerrahisi (FESC) ya da Modifiye Caldwell Luc yaklaşımı uygulanmış ve deShazo tanısal kriterlerini sağlayan 15 hasta (6 erkek, 9 kadın; ort. yaş 56.2 yıl; dağılım, 33-86 yıl) çalışmaya dahil edildi. Hastaların ayrıntılı öyküleri, fiziksel ve endoskopik muayeneleri, tam kan sayımı sonuçları, görüntüleme bulguları, ameliyat raporları, mikolojik ve histopatolojik bulguları retrospektif olarak incelendi.

Bulgular: On iki hastada eşlik eden başka hastalık yok iken bir hastada lenfoma, bir hastada karaciğer yetmezliği ve bir hastada da diyabetes mellitus vardı. Ana semptomlar 13 hastada yüz ve baş ağrısı, iki hastada burun tıkanıklığıydı. Bir hastada diş enstrümantasyonu öyküsü vardı. Ameliyat öncesi kan değerlerine göre hiçbir hastada eozinofili yoktu. Hiçbir hastada pulmoner aspergilloz veya astım öyküsü yoktu. Ameliyat öncesi görüntüleme incelemesinde yedi hastada sfenoid, yedi hastada maksiller sinüs tutulumu vardı. Bir hastada mantar topu orta konkada yerleşikti. Bilgisayarlı tomografide en sık gözlenen bulgu tüm hastalarda ilgili sinüslerdeki heterojen opasiteydi. Yedi hastada bu alanların içinde düzensiz kalsifikasyonlar ve heterojen görünüm vardı. Hastaların 13'ü FESC, ikisi modifiye Caldwell Luc işlemiyle ameliyat edildi. Ameliyat sırasındaki bulgular değerlendirildiğinde, sfenoid sinüs kaynaklı hastalarda sinüs ostiumu çevresinde granülasyon ve polipoid dokular vardı. On beş hastanın üçünde nazal polipozis vardı. Spesimenlerde pozitif kültür sonucu yoktu. Periyodik asit-Schiff boyama ile mikroskopik olarak invaziv olmayan mantar hifaları görüldü. Üç hastada ek olarak nazal poliple uyumlu mikroskopi vardı. Hiçbir hastaya ameliyat öncesi veya sonrasında sistemik ya da lokal antifungal tedavi verilmedi.

Sonuç: Paranasal mantar topu bu bölgenin sinüzitlerinde ayırıcı tanıda akla gelmesi gereken, görüntüleme bulgusu ile tipik, antifungal gerektirmeyen ve cerrahi olarak tedavi edilebilen bir enfeksiyondur.

Anahtar sözcükler: Aspergillus; mantar topu; paranasal sinüs.

ABSTRACT

Objectives: This study aims to review the paranasal fungus ball literature with 15 cases.

Patients and Methods: Fifteen patients (6 males, 9 females; mean age 56.2 years; range, 33 to 86 years) who underwent functional endoscopic sinus surgery (FESS) or modified Caldwell Luc approach applied and met the deShazo diagnostic criteria were included in the study. Patients' detailed histories, physical and endoscopic examinations, complete blood count results, imaging findings, operative reports, and mycological and histopathological findings were reviewed retrospectively.

Results: While 12 patients had no other accompanying disease, one patient had lymphoma, one patient had liver failure and one patient had diabetes mellitus. Major symptoms were face and head pain in 13 patients and nasal obstruction in two patients. There was dental instrumentation history in one patient. According to preoperative blood values, no patient had eosinophilia. No patient had any history of pulmonary aspergillosis or asthma. In preoperative imaging examination, seven patients had sphenoidal and seven patients had maxillary sinus involvement. In one patient, the fungus ball was localized in the middle concha. The most frequently observed finding in computed tomography was heterogeneous opacity in the involved sinuses in all patients. Seven patients had irregular calcifications and heterogeneous appearances within these areas. Of the patients, 13 were operated by FESS and two by modified Caldwell Luc procedure. When intraoperative findings were examined, there were granulation and polypoid tissues surrounding the sinus ostium in sphenoidal sinus-involved patients. Of the 15 patients, three had nasal polypoid. Specimens had no positive culture results. Non-invasive fungus hyphae were seen microscopically by periodic acid-Schiff staining. Three patients had additional microscopy compatible with nasal polyp. None of the patients was administered pre- or postoperative systemic or local antifungal treatment.

Conclusion: Paranasal fungus ball is an infection that should come to mind in the differential diagnosis of sinusitis of this region with typical imaging finding that does not require antifungal and may be treated surgically.

Keywords: Aspergillus; fungus ball; paranasal sinus.

Geliş tarihi: 30 Aralık 2017 Kabul tarihi: 12 Mayıs 2018

İletişim adresi: Dr. Kerem Kökoğlu, Develi Devlet Hastanesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Kliniği, 38400 Develi, Kayseri, Türkiye.
Tel: 0507 - 540 72 70 e-posta: dr.kokoglu@gmail.com

Atf:

Ketenci İ, Ünlü Y, Kökoğlu K, Şahin Mİ. Paranasal mantar topu enfeksiyonu: On beş olgu eşliğinde literatürün gözden geçirilmesi.
KBB Uygulamaları 2018;6(2):54-58.

Paranasal bölgede gelişen fungal sinüzitler başlıca invaziv ve invaziv olmayan fungal sinüzitler olarak ikiye ayrılır. Mantar hifalarının mukoza, submukoza, damarsal yapılar ve kemiğe kadar ilerlemesi invazyon belirtisi olarak kabul edilir.^[1] İnvaziv formlar olan akut fulminan fungal sinüzit (mukor), granülamatöz ve kronik invaziv mikozis daha çok immünitesi düşük hastalarda gelişir. İnvaziv olmayan formlar ise immünitesi normal olan kişilerde görülür. Mantar topu, alerjik fungal sinüzit ve eozinofilik fungal sinüzit invaziv olmayan formlardır.^[2]

Mantar topu 18. yüzyılın sonunda tanımlanmıştır. Mantar topu, genellikle tek, nadiren birden fazla sinüsü tutan ektramukozal olarak mantar çoğalmasını ifade eder.^[3] Patojen mikroorganizma çoğunlukla *Aspergillus* türleridir.^[2]

Bu yazıda 15 olgu eşliğinde paranasal bölgede yerleşen mantar topu enfeksiyonları gözden geçirilmektedir.

HASTALAR VE YÖNTEMLER

Fonksiyonel endoskopik sinüs cerrahisi (FESC) ya da Modifiye Caldwell Luc yaklaşımı uygulanmış ve deShazo kriterlerini sağlayan^[4] 15 hasta (6 erkek, 9 kadın, ort yaş 56.2 yıl; dağılım, 33-86 yıl) çalışmaya dahil edildi. Bu kriterler hastalarda invaziv fungal sinüzitin dışlanması ve mantar topunun (sinüs miçetoma) histopatolojik olarak diğer invaziv olmayan fungal sinüzitlerden ayrılmasıdır. Ayrıntılı öykü, fizik muayene, laboratuvar testleri, görüntüleme bulguları, ameliyat bulguları, patoloji ve mikrobiyoloji bulguları retrospektif olarak incelendi.

Ameliyat sırasında alınan mukozal biyopsiler patoloji ve mikoloji laboratuvarında incelendi. Kültür için

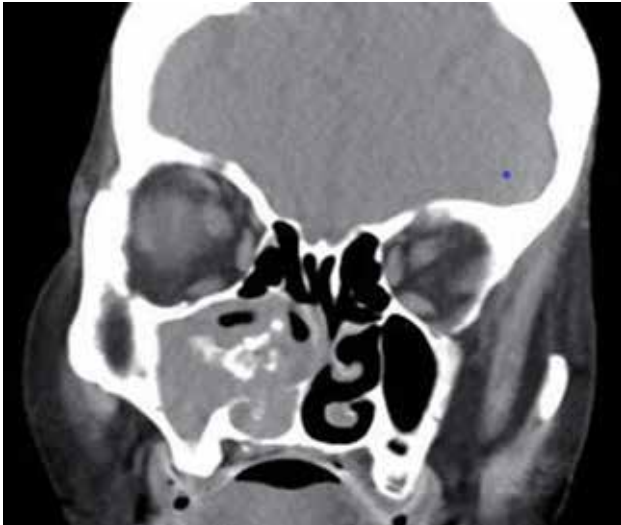
kloramfenikol içeren Sabouraud Dextrose agara ekim yapıldı. Histopatoloji PAS boyası ile incelendi.

BULGULAR

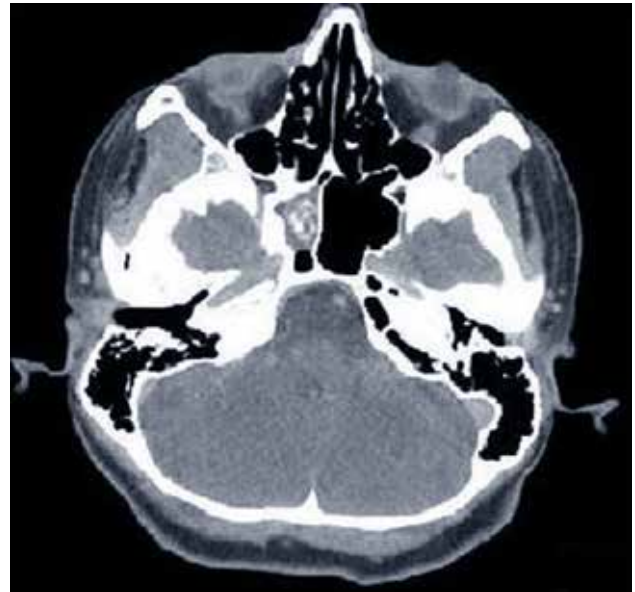
On iki hastada eşlik eden başka hastalık yok iken bir hastada lenfoma, bir hastada karaciğer yetmezliği, diğer bir hastada ise diyabetes mellitus vardı. Hastaların 13'ünde başvuru şikayeti yüz ve baş ağrısı iken ikisinde burun tıkanıklığı idi. Bir hastada geçirilmiş diş ameliyatı öyküsü vardı. Fizik ve endoskopik muayene sırasında bir hastada sağ yan burun duvarında defekt, üç hastada nazal polipozis, maksiller sinüs yerleşimli bir hastada orta meatusta sert kıvamda rinolite benzer mantar topu, sfenoid sinüs yerleşimli olanların dördünde sfenoid sinüs ostiumu önünde granülasyon dokusu ve polipoid yapılar, orta konka yerleşimli olan hastada da büyük havalı konka vardı.

Ameliyat öncesi kan değerleri incelendiğinde hiç bir hastada eozinofili görülmedi. Ameliyat öncesi görüntülemelerde yedi hastada sfenoid, yedi hastada maksiller sinüs tutulumu gözlemlendi. Bir hastada ise orta konkada mantar topu yerleşmişti ve bu da oldukça nadir bir durumdu. Bilgisayarlı tomografide (BT) en sık gözlenen bulgu tüm hastalarda ilgili sinüste gözlenen opasiteler idi. Nazal polipozisli hastalarda birden fazla sinüste opasite izlendi. Yedi hastada bu alanların içinde yerleşmiş düzensiz kalsifiye odaklar, heterojen görünümüler vardı (Şekil 1, 2).

On üç hastaya endoskopik olarak, iki hastaya modifiye Caldwell Luc yaklaşımıyla girişimde bulunuldu. Ameliyat sırasındaki bulgular değerlendirildiğinde



Şekil 1. Sağ maksiller sinüste opasite alanları ve medial duvar destrüksiyonu ile birlikte görülen mantar topu.



Şekil 2. Sağ sfenoid sinüste izole, hiperdens alanlar ile birlikte mantar topu.



Şekil 3. Mantar topu ameliyatı sırasında sinüsün ilk açıldığı sırada alınan görüntü. Mantar elementlerinin oluşturduğu sarı-gri görünüm izlenmekte.

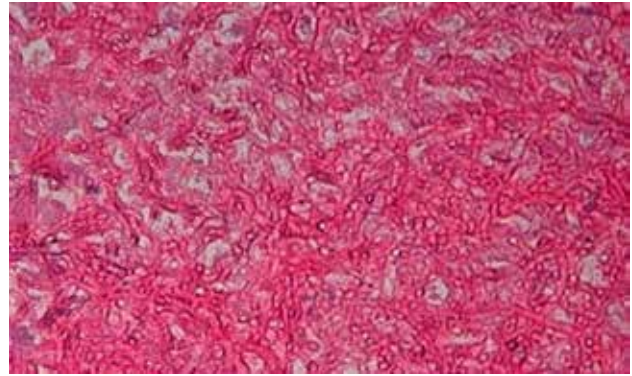
sfenoid sinüs kaynaklı olgularda sinüs ostiumu çevresinde granülasyon dokusu ve polipoid dokular vardı. Maksiller sinüs tutulumu olan bir hastada orta meatusta rinolit şeklinde yapılar vardı. On beş hastanın üçünde nazal polipozis vardı. Ameliyat sırasındaki endoskopik görüntü Şekil 3'te verilmiştir.

Materyallerden gönderilen kültürler incelendiğinde hiçbirinde üreme olmadı. Spesimenler patolojik olarak PAS boyamaya tabi tutuldu ve dokuya invaze olmayan mantar hifaları gözlemlendi (Şekil 4). Üç hastada ilave olarak nazal poliple uyumlu mikroskopik vardı. Hiçbir hastaya ameliyat öncesi veya sonrasında sistemik ya da lokal antifungal tedavi verilmedi.

TARTIŞMA

Paranasal bölgede mantar topu genellikle immünitesi normal olan kişilerde gözlenen ve tek sinüs tutulumu ile giden, mukozal ve derin dokulara invazyon yapmayan mantar enfeksiyonudur.^[5,6] Patogenezi net bilinmemektedir ancak mantar sporlarının hava yolu veya dental işlem sonucu sinüslere ulaştığını savunanlar vardır.^[7] Genellikle erişkinlerde ve kadınlarda daha sık görülür.^[1] Çalışmamızda hastaların dokuzu kadındı ve en küçüğü 33 yaşında olmak üzere yaş ortalaması 56.2 idi. Maksiller sinüs mantar topu olan hastaların birinde geçirilmiş diş ameliyatı öyküsü vardı. Mantar topu, genelde immün sistemi normal olan kişilerde görülmekle birlikte, çalışmamızda iki olguda (%13.3) lenfoma ve karaciğer yetmezliği nedeniyle immün baskılanma vardı.

Hastaların çoğunda atipik semptomlar vardır ve bu nedenle tanı gecikebilir.^[7] Semptomatik olduğunda en



Şekil 4. PAS boyamada izlenen yoğun mantar hifaları.

sık görülen semptom baş ve yüz ağrısıdır. Ayrıca hastalar geniz akıntısı, burunda kötü koku ve öksürükten şikayet edebilirler.^[8] Çalışmamızda 13 hastada baş ve yüz ağrısı, iki hastada burun tıkanıklığı majör semptomlardı.

Fizik ve endoskopik muayeneye bakıldığında hastaların yarısında endoskopi bulguları normaldi.^[9] Sfenoid mantar toplarında sfeno-etmoid reseste pürülan akıntı ve polip gözlenebilir.^[8] Çalışmamızda sfenoid mantar topu olanlarda sinüs ostiumunda granülasyon benzeri dokular vardı. Üç hastada nazal polipozis vardı. Maksiller sinüs mantar topu olan hastaların birinde rinolit benzeri görünüm, birinde ise maksiller sinüs medial duvarında defekt görüldü.

Mantar topu olan hastalarda atopi sıklığı normal nüfustan farksızdır ve cilt testleri ile spesifik immüoglobülin E (IgE) düzeyleri normaldir.^[9] Çalışmamızda bu testler yapılmamıştı ancak ameliyat öncesi tam kan sayımında eozinofili gözlenen hasta yoktu.

Görüntülemeye tutulan sinüste tam ya da tam olmayan opasite gözlenir. En sık maksiller sinüs tutulur. Ayrıca %25-50 hastada tutulan bölgenin merkezinde hiperdens alanlar izlenir.^[10] Literatürde olağandışı olarak otomastoidektomi kavitesi ve konka büllozada yerleşen mantar topundan da bahsedilmiştir.^[11] Çalışmamızda yedi olguda (%46.6) sfenoid sinüs tutulumu ve aynı oranda maksiller sinüs vardı ve literatürden farklıydı. Ayrıca altı hastanın (%40) görüntülenmesinde hiperdens alanlar izlendi.

Tanıda özellikle tek taraflı sinüzitlerde mantar topundan şüphelenmek gerekir. Görüntülemeye de genelde tek sinüs tutulumuyla giden ve merkezde hiperdens alanların bulunduğu opasiteler tanıyı destekler. Ancak, kesin tanı histopatolojik inceleme ile konur.^[7]

Ayırıcı tanıda alerjik fungal rinosinüzit akla gelmelidir. Alerjik fungal rinosinüzit, ektramukozal mantar elemanlarına karşı burun mukozasının hipersensitivite yanıtıdır. Hastalar genelde genç erişkin, immünkompetan

atopik kişilerdir. Çoğunda astım, nazal polip, aspirin sensitivitesi ve eozinofili gözlenir.^[12] Histopatolojide dejenere olmuş eozinofillerden oluşan Charcot-Leiden kristalleri görülebilir. Bent ve Kuhn tanı kriterlerini karakteristik, yapışkan alerjik musin, histopatolojide mantar elemanlarının gösterilmesi ya da kültürde üretilmesi, tipik BT bulguları ve mantara karşı cilt testi ya da *in vitro* testler ile tip 1 hipersensitivite gösterilmesi olarak belirtmiştir.^[13] Çalışmamızda sunulan hastaların hiçbirinde atopi ve eozinofili yoktu. Spesimen incelemesinde tipik Charcot-Leiden kristalleri bulunmamaktaydı.

Tedavide cerrahi önerilir. Asemptomatik olan hastaların tedavisiz takibi ile ilgili yapılmış kontrollü çalışmalar bulunmamaktadır.^[7] Eskiden Caldwell Luc yaklaşımı kullanılırken, günümüzde altın standart FESC'dir.^[14] Maksiller sinüs tutulumunda unsinektomi ile birlikte orta mea antrostomisi yapılabilir.^[7] Klossek ve ark.nın^[9] serisinde hastaların %65'inde mantar topuna ulaşmak için orta meatus genişletmesinin yanında alt meatus antrostomisi gerektiğini bildirmiştir. Mantar topu tanısından emin olduğunda ve kemik erozyonu da yoksa, bu hastalara ilave sistemik ya da lokal antifungal önerilmektedir.^[9] Çalışmamızda iki hastaya modifiye Caldwell Luc yaklaşımı uygulanırken 13 hastaya FESC yapıldı ve hiçbirine antifungal ilaç verilmedi.

Olguların %23-50'sinde mantar kültüründe üreme olur.^[2] En sık elde edilen patojen *Aspergillus* türleridir.^[15] Klossek ve ark.nın^[9] serisinde pozitif kültürlerin %93'ünde *Aspergillus fumigatus* üremiştir. Pagella'nın 81 olguluk serisinde 28 hastada üreme olmuştur ve bunun da çoğunluğu (%75) *Aspergillus* türüdür.^[1] Çalışmamızda hastaların hiçbirinde kültürde patojen mantar üremesi olmadı. Ancak tüm spesimenlerde dokuya invaze olmayan yoğun mantar hifası izlendi.

Mantar topu mukoza dışı bir enfeksiyondur ve histopatolojik olarak doku reaksiyonu izlenmez. Ancak mukozada non-spesifik enflamasyon yanıtı olarak plazma hücresi ve lenfosit gözlenebilir. Fungal elemanlar Hematoksilen-Eosin, PAS ve gümüş boyaları ile gözlenebilir.^[7] En spesifik boya gümüş boyasıdır. Histopatolojik olarak tür ayrımı yapılamaz. *Aspergillus* 45 derece ile dallanan ikili hifalar şeklinde görülse de bu görüntü başka mantarlarda da gözlenebilir.^[16] Tür ayrımı için kültür gerekmektedir.^[17] Çalışmamızda tüm spesimenler PAS ile boyandı ve invazyon varlığı araştırıldı, ancak hiçbirinde doku invazyonu görülmedi.

Sonuç olarak, paranasal sinüslerin mantar topu immünitesi normal olan kişilerde non-spesifik şikayetlerle giden, tesadüfi olarak saptanabilen bir enfeksiyondur. Hiperdens alanlar içeren BT görüntüsü tanıya yardımcıdır. Tedavide altın standart FESC'dir. Spesimenden mantar tipleme için kültür çalışması, invazyon için ise

histopatolojik inceleme gerekir. Antifungal tedavi önerilmemektedir.

Çıkar çakışması beyanı

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

Finansman

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Pagella F, Matti E, De Bernardi F, Semino L, Cavanna C, Marone P, et al. Paranasal sinus fungus ball: diagnosis and management. *Mycoses* 2007;50:451-6.
2. Ferguson BJ. Fungus balls of the paranasal sinuses. *Otolaryngol Clin North Am* 2000;33:389-98.
3. deShazo RD, Chapin K, Swain RE. Fungal sinusitis. *N Engl J Med* 1997;337:254-9.
4. deShazo RD, O'Brien M, Chapin K, Soto-Aguilar M, Swain R, Lyons M, et al. Criteria for the diagnosis of sinus mycetoma. *J Allergy Clin Immunol* 1997;99:475-85.
5. Dufour X, Kauffmann-Lacroix C, Ferrie JC, Goujon JM, Rodier MH, Karkas A, et al. Paranasal sinus fungus ball and surgery: a review of 175 cases. *Rhinology* 2005;43:34-9.
6. Pinar E, Imre A, Ece AA, Aladag I, Aslan H, Özkul Y et al. Paranasal sinus fungus ball: analysis of clinical characteristics and surgical outcomes. *ENT Updates* 2015;5:124-7.
7. Grosjean P, Weber R. Fungus balls of the paranasal sinuses: a review. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2007;264:461-70.
8. Klossek JM, Peloquin L, Fourcroy PJ, Ferrie JC, Fontanel JP. Aspergillomas of the sphenoid sinus: a series of 10 cases treated by endoscopic sinus surgery. *Rhinology* 1996;34:179-83.
9. Klossek JM, Serrano E, Péloquin L, Percodani J, Fontanel JP, Pessey JJ. Functional endoscopic sinus surgery and 109 mycetomas of paranasal sinuses. *Laryngoscope* 1997;107:112-7.
10. Stammberger H, Jakse R, Beaufort F. Aspergillosis of the paranasal sinuses x-ray diagnosis, histopathology, and clinical aspects. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1984;93:251-6.
11. Bektaş D, Ural A, Caylan R, Bahadır O, Kul N. Two cases with unusual mycetoma localizations in upper respiratory system. *Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg* 2011;21:338-40.
12. Demir D, Süoğlu Y, Güven M, Yılmaz MS. Prevalence of allergic fungal rhinosinusitis among patients with chronic rhinosinusitis with or without nasal polyposis who underwent endonasal sinus surgery in northwestern Turkey. *Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg* 2014;24:259-64.
13. Bent JP 3rd, Kuhn FA. Diagnosis of allergic fungal sinusitis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;111:580-8.
14. de Freitas JL, Borst J, Meenhorst PL. Easy visualisation of *Legionella pneumophila* by "half-a-gram" stain procedure. *Lancet* 1979;1:270-1.

15. Bozkurt MK, Ozçelik T, Saydam L, Kutluay L. A case of isolated aspergillosis of the maxillary sinus. [Article in Turkish] Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg 2008;18:53-5.
16. Denning DW. Aspergillus species. In: Mandell GL, Bennett JE, Dolin R, editor. Mandell, Douglas, and Bennett's principles and practice of infectious diseases. 5th ed. Philadelphia: Churchill Livingstone; 2000. p. 2674-84.
17. Schell WA. Histopathology of fungal rhinosinusitis. Otolaryngol Clin North Am 2000;33:251-76.