

Maxillectomia em paciente diabética tipo II, diagnosticada com Mucormicose rinomaxilar, com posterior reabilitação protética - Relato de caso

Maxillectomy in a type II diabetic patient, diagnosed with rhinomaxillary mucormycosis, with subsequent prosthetic rehabilitation - Case report

Maxilectomía en paciente diabética tipo II diagnosticada de mucormicosis rinomaxilar, con posterior rehabilitación protésica - Reporte de caso

RESUMO

A mucormicose é uma infecção fúngica angioinvasiva que afeta uma ampla faixa etária, geralmente imunodeprimidos, sem predileção por gênero ou raça e com alta taxa de mortalidade. Essa infecção inicia-se no nariz, devido a inalação dos esporos, podendo-se espalhar pelos seios paranasais, órbita e estruturas intracranianas. As características clínicas incluem parestesia perinasal, celulite periorbitária, rinorréia, obstrução nasal, epistaxe e diminuição de peso. O tratamento efetivo dessa comorbidade compoe uma combinação de manejo clínico e medicamentoso, conjuntamente com desbridamento cirúrgico radical do tecido infectado e/ou necrótico. O caso clínico descrito nesse trabalho refere-se a uma paciente diagnosticada com Mucormicose rino maxilar e diabetes do tipo II, a qual foi submetida a procedimento cirúrgico de hemimaxilectomia do lado esquerdo com posterior reabilitação protética para selamento de comunicação buco-naso-sino-etmoidal.

Palavras-chaves: Mucormicose; Diabetes tipo 2; Maxila; Reabilitação bucal

ABSTRACT

Mucormycosis is an angioinvasive fungal infection that affects a wide age group, usually immunocompromised, with no gender or race predilection, and with a high mortality rate. This infection starts in the nose, due to the inhalation of spores, and can spread through the paranasal sinuses, orbit and intracranial structures. Clinical features include perinasal paresthesia, periorbital cellulitis, rhinorrhea, nasal obstruction, epistaxis and weight loss. Effective treatment of this comorbidity comprises a combination of clinical and drug management, together with radical surgical debridement of infected and/or necrotic tissue. The clinical case described in this work refers to a patient diagnosed with Mucormycosis Rhinomaxilla and Type II diabetes, who underwent a surgical procedure of left hemimaxillectomy with subsequent prosthetic rehabilitation for sealing of the buccal-nasal-sino-ethmoidal communication. **Key-words:** Mucormycosis; Type 2 diabetes; Jaw; Oral rehabilitation

RESUMEN

La mucormicosis es una micosis angioinvasiva que afecta a un amplio grupo de edad, habitualmente inmunodeprimidos, sin predilección de género ni raza, y con una alta tasa de mortalidad. Esta infección comienza en la nariz, debido a la inhalación de esporas, y puede

Aline Bergman de Souza Herculano
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1636-2036>
Universidade Federal de Mato Grosso do Sul, Brasil
E-mail: aline.herculano@ufms.br

José Carlos García de Mendonça
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3217-872X>
Universidade Federal de Mato Grosso do Sul, Brasil
E-mail: mendoncajosecarlosmendonca@gmail.com

Gustavo Silva Pelissaro
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3217-872X>
Universidade Federal de Mato Grosso do Sul, Brasil
E-mail: gustavopelissaro@hotmail.com

Daniel Isao Nakamura
Universidade Federal de Mato Grosso do Sul, Brasil

Amauri Ferrari Paroni
ORCID: <http://orcid.org/0000-0003-2501-0128>
Universidade Federal de Mato Grosso do Sul, Brasil

extenderse a través de los senos paranasales, la órbita y las estructuras intracraneales. Las características clínicas incluyen parestesia perinasal, celulitis periorbitaria, rinorrea, obstrucción nasal, epistaxis y pérdida de peso. El tratamiento eficaz de esta comorbilidad comprende una combinación de manejo clínico y farmacológico, junto con un desbridamiento quirúrgico radical del tejido infectado y / o necrótico. El caso clínico descrito en este trabajo se refiere a una paciente diagnosticada de Mucormicosis Rinomaxilar y diabetes Tipo II, que fue sometida a un procedimiento quirúrgico de hemimaxilectomía izquierda con posterior rehabilitación protésica para sellar la comunicación buco-nasal-sino-etmoidal. **Palabras clave:** Mucormicosis; Diabetes tipo 2; Mandíbula; rehabilitación oral

INTRODUÇÃO

A mucormicose é descrita como uma infecção fúngica angioinvasiva oportunista, que afeta uma grande faixa etária, sem predileção por gênero ou raça e com uma mortalidade em torno de 50% a 85%, que acomete geralmente indivíduos imunodeprimidos, sobretudo diabéticos descompensados. Sua frequência, varia conforme a população, como por exemplo nos Estados Unidos, a forma Rinocerebral é a mais comum das mucormicoses e na Índia o fator causal é devido a alta prevalência do diabetes descompensado.¹

Uma revisão recente realizada entre os períodos de Janeiro de 2000 a janeiro de 2017, com 851 casos, demonstrou que a prevalência dessa comorbidade é ligeiramente maior na Europa (34%) do que na Ásia (31%), seguido pelas Américas do norte e sul (28%), África (3%), Austrália e Nova Zelândia 3%.³

Essa infecção inicia-se no nariz, através da inalação dos esporos do fungo, podendo estender-se para estruturas intracranianas através de penetração nos vasos sanguíneos, formando trombos que causam necrose de tecidos moles e duros.⁴

O diagnóstico é realizado através de exames clínicos e de imagem, como a tomografia computadorizada, na qual observa-se, geralmente, uma opacificação dos seios da face associado ao apagamento regular de suas paredes ósseas adjacentes. Os achados histológicos podem apresentar necrose e várias hifas, ramificadas e não septadas na periferia.⁵

O tratamento efetivo de tal comorbidade, se dá através de uma combinação de manejo clínico e medicamentoso, como correção da anormalidade sistêmica, administração de altas doses de uma das

formulações lipídicas de Anfotericina b, além de desbridamento cirúrgico radical do tecido infectado e/ou necrótico.^{2,5}

RELATO DE CASO

Paciente do gênero feminino, leucoderma, 50 anos de idade, de ocupação doméstica, foi encaminhada ao um hospital de ensino, com o diagnóstico de Mucormicose oriunda de biópsia realizada em outro serviço. Na anamnese negou ser etilista, tabagista e uso de drogas ilícitas. Referiu que possuía hipertensão arterial sistêmica há 4 anos sob controle medicamentoso e histórico familiar de mãe e irmão diabéticos.

Na avaliação clínica intraoral apresentou mucosa de coloração cianótica na região apical dos elementos dentários 11 e 22, com fistulas vestibulares apresentando drenagem espontânea de exsudato purulento (Figura 1A). Solicitado exame tomográfico de seios da face para observar a área comprometida da maxila e anexos (Figura 1B), evidenciando presença de área hiperdensa em seio maxilar esquerdo e rarefação óssea em região anterior esquerda da maxila e palato duro.

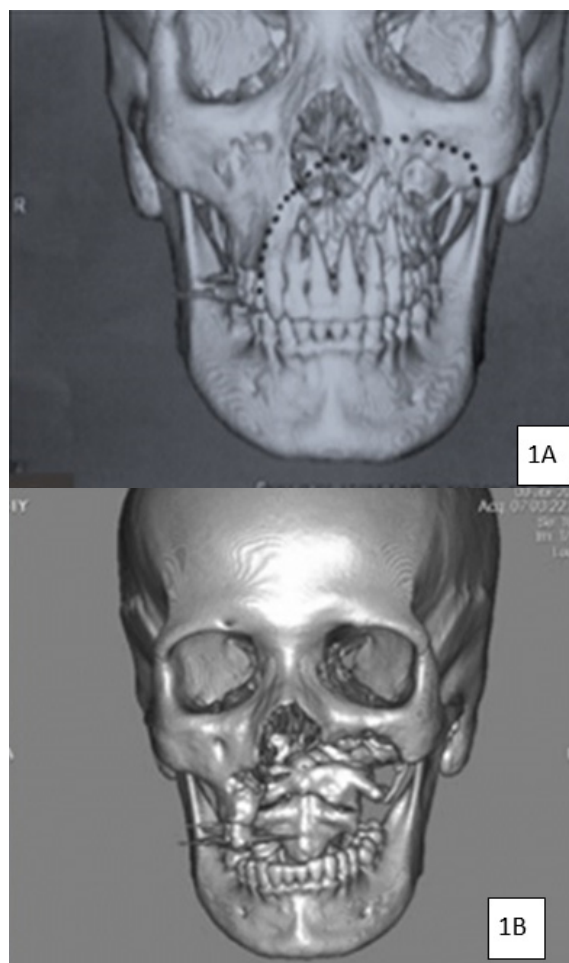


Figura 1 - A-Tomografia pré operatoria para planejamento cirurgico; B- Tomografia pós operatoria para a demonstração de área ressecada.

Nos exames bioquímicos admissionais não apresentou alterações em hemograma, função renal, hepática e glicemia em jejum, no entanto, apresentou hemoglobina glicada de 8%, levando ao diagnóstico de diabetes do tipo II pela equipe de Endocrinologia da unidade, que passou a acompanhar o caso.

As equipes de Cirurgia de Cabeça e Pescoço e Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial realizaram o procedimento cirúrgico de maxilectomia parcial com margem de segurança de 2 cm (Figura 2A) e instalação de sonda nasoenteral. A peça cirúrgica retirada (Figura 2B) foi enviada para exame anatomopatológico que revelou presença de infiltrado inflamatório, esparsas estruturas fúngicas consistentes com mucormicose e com pesquisa positiva de fungos (Figura 3A).



Figura 2 - A- Transoperatório após remoção de porção maxilar necrótica e visualização de concha nasal inferior; B- Exposição e comparação de dimensão de peça anatomia de osso maxilar e osso palatino.

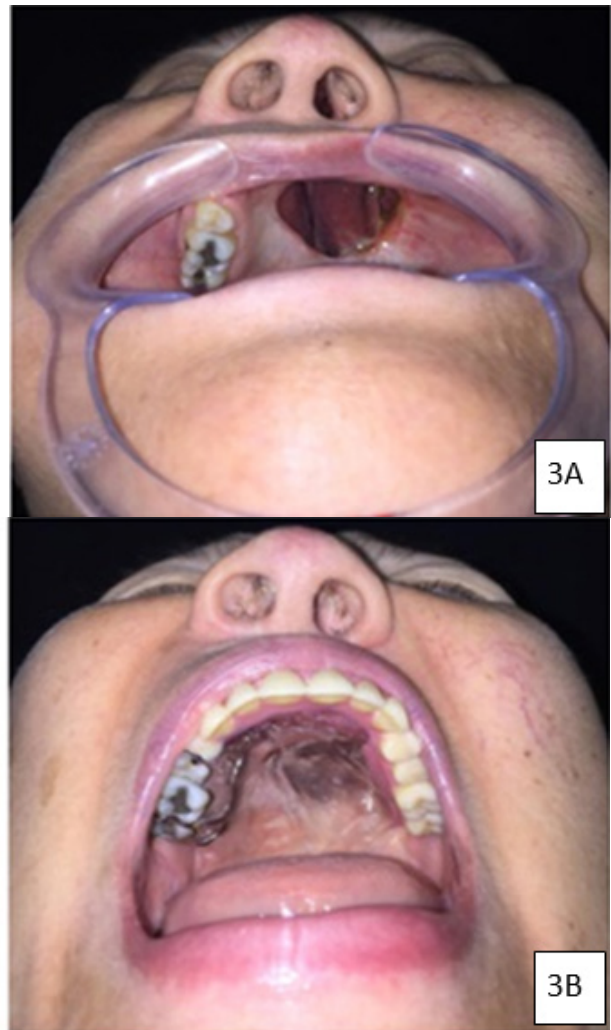


Figura 3 - A- Aspecto de área cirúrgica após 27 meses de acompanhamento e, presença de comunicação buco-naso-etmoidal; B- Reabilitação dentária com prótese obliteradora bem adaptada, vedando comunicação buco-naso-etmoidal

A paciente permaneceu internada durante 29 dias em enfermaria, sob terapia antifúngica com Anfotericina b 50 mg uma vez ao dia. Na alta hospitalar, permaneceu com essa medicação associada a Teicoplanina 400 mg por 30 dias, com objetivo de prevenir infecção da comunicação buco-naso-etmoidal desenvolvida no pós-operatório por deiscência do retalho. Em tempo, foi realizado o controle de função renal e hepática, devido a possível efeito colateral dos medicamentos prescritos.

Com acompanhamentos periódicos no ambulatório de Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial aos 2, 5 e 20 meses para controle pós operatório, a paciente apresentou aspecto cicatricial satisfatório, sem sinais de recidiva da lesão ao exame clínico e tomográfico (Figura 3B) e ausência de demais comorbidades.

Aos 5 meses foi proposta a reabilitação com prótese obturadora intra-oral (Figura 4A-B),

no intuito de fechamento da comunicação buco-naso-etmoidal, bem como proporcionar melhores condições mastigatórias, fonatórias, de deglutição e diminuição de assimetria facial (Figura 5A-B). Passados 24 meses, foi necessária a confecção de uma segunda prótese obturadora, uma vez que o processo de reparo mais avançado desestabilizou a adaptação da primeira prótese, algo já previsto pela equipe e informado para a paciente.

Atualmente a paciente encontra-se com 27 meses de acompanhamento pelas equipes de Infectologia, Endocrinologia, Cirurgia de Cabeça e Pescoço e Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial, sem sinais de recidiva e satisfeita com o tratamento realizado.

DISCUSSÃO

Neste trabalho, relatou-se o caso de uma paciente portadora de Mucormicose, que é referida como uma infecção fúngica aguda, com alta taxa de mortalidade, cujo desenvolvimento é explicado através da inalação dos esporos dos fungos, que tornam-se patogênicos em condições anaeróbicas dos seios e também em casos de acidose tecidual decorrente do quadro de diabetes descompensado compatível com o caso descrito.³

As hifas invadem vasos sanguíneos produzindo uma reação fibrinóide que é responsável pela oclusão das artérias, ocasionando uma isquemia e a formação do tecido necrótico de pele e mucosas. Em fases mais tardias há a presença de lesão necrótica nasal ou sobre a mucosa oral.² Fato observado no caso descrito, que apresentou áreas cianóticas em mucosa palatina, além de fistulas e exsudato purulento na região vestibular apical dos elementos dentários 11 e 22, assim como uma porção óssea friável.

A mucormicose no palato duro pode ser considerado um sinal agressivo da doença e indica uma rápida progressão na cavidade nasal, uma vez que são tidos como uma característica clínica incomum, somente vista em casos severos e que às vezes, requer correção com prótese obliteradora fato que norteou a conduta no caso apresentado.²

O desconhecimento do diabetes do tipo II, por parte da paciente, foi o provável fator de desenvolvimento severo da infecção fúngica, com acometimento inclusive do palato, algo raramente descrito. Esse diagnóstico só foi possível diante de anamnese bem dirigida, que revelou histórico familiar de diabetes, e por alteração de exames laboratoriais como PCR e hemoglobina glicada levando à necessidade de acompanhamento multiprofissional com as equipes de Endocrinologia

Infectologia, Cirurgia de Cabeça e Pescoço e Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial.

Exames de imagem, como a tomografia computadorizada, são essenciais para observação da extensão das áreas acometidas por essa infecção, que provoca opacificação com microcalcificações, obliterando completa ou parcialmente o seio maxilar acometido. A ressonância magnética é indicada para melhor visualização do comprometimento vascular e infiltração em outros órgãos, como o cérebro.³ No caso apresentado, foi solicitada apenas a tomografia de face, que revelou extenso acometimento ósseo e de partes moles faciais do lado esquerdo, com áreas de rarefação óssea na região maxilar, com extensão até o osso nasal direito e comprometimento de osso palatino.

Apesar dos exames clínicos e de imagem, o diagnóstico definitivo é realizado mediante análise histopatológica dos tecidos afetados e culturas, onde observa-se a presença de necrose e hifas não septadas na periferia, que tendem a ramificar-se em ângulos retos de 90°. Situação semelhante foi encontrada nos achados histopatológicos do caso descrito, que ainda demonstrou pesquisa de fungos com resultado positivo, através de coloração específica de lâmina.

O tratamento medicamentoso isolado não é efetivo, tendo em vista a pobre concentração da droga e sua biodisponibilidade no sítio de infecção devido ao acometimento vascular da doença. Para o sucesso do tratamento, é necessário um diagnóstico precoce, correção de anormalidades sistêmicas, entre elas estabilização metabólica, e tratamento cirúrgico ressectivo combinado com terapia antifúngica sistêmica de longa duração, geralmente com o uso de Anfotericina b ou Anfotericina lipossomal.⁴ Essa literatura corrobora com o tratamento proposto, onde se instituiu a terapia antifúngica, controle metabólico com a equipe de endocrinologia e desbridamento cirúrgico radical de tecidos necrosados com margem de segurança.

Algumas formas menos nefrotóxicas de Anfotericina b, como a forma lipossomal, em dispersão coloidal e em complexo lipídico podem ser mais seguras. Em estudo comparando a eficácia da Anfotericina b lipossomal e a Anfotericina b não lipossomal, Rani e colaboradores encontraram resultado superior naqueles pacientes tratados com a primeira delas.⁴ Devido à indisponibilidade da Anfotericina lipossomal à época do tratamento deste caso, a droga de escolha da terapia antifúngica para a paciente foi a Anfotericina b desoxicolato, que não produziu efeitos colaterais durante todo o tratamento, confirmado por acompanhamento periódico de exames laboratoriais de funções hepática e renal.

Cirurgias de maxilectomia geralmente causam grandes defeitos entre a cavidade bucal e nasal, necessitando de uma reabilitação do sistema estomatognático, no intuito de oferecer conforto e estética ao paciente, cujo objetivo é criar um selamento entre essas cavidades, protegendo a região quanto a traumas, impactação de alimentos, substituindo artificialmente partes ausentes, proporcionando melhor fonação, deglutição, estética e autoestima, reintegrando o indivíduo a sociedade.²⁵ Embora alguns autores sugiram que o planejamento da reabilitação protética deva ser feito antes da cirurgia e que um dispositivo provisório deva ser instalado imediatamente durante o ato cirúrgico, essa condição não foi discutida porque previa-se a manutenção da mucosa queratinizada do palato durante o ato operatório, fato que não se mostrou viável, levando-se à confecção da prótese obturadora no decorrer do pós-operatório. Assim, a primeira prótese confeccionada foi instalada por volta dos 5 meses de pós-operatório, e a prótese definitiva instalada após 27 meses, garantindo uma boa acomodação dos tecidos remanescentes e satisfatório selamento, trazendo conforto e qualidade de vida à paciente.

CONCLUSÃO

Uma comorbidade relativamente comum como o diabetes do tipo II pode favorecer a instalação de uma grave infecção fúngica, sendo importante seu diagnóstico precoce e controle. O tratamento radical proposto nesse caso foi necessário devido à extensão dos danos provocados pelo fungo, o que mostrou-se eficaz em 3 anos de acompanhamento, com uma melhor qualidade de vida para a paciente através da confecção da prótese obturadora. por cooperação multiprofissional, devolveu o paciente ao convívio social e reestabeleceu seu bem-estar psicológico.

REFERÊNCIAS

1. Greco A, Marinelli C, Fusconi M, et al. Clinic manifestations in granulomatosis with polyangiitis. *Int J Immunopathol Pharmacol*. 2016 October; 29(2):151-159.
2. Sowida M. Granulomatosis polyangiitis. *BMJ Case Rep*. 2019 June; 12(7):1-5.
3. Weeda LW, Coffey SA. Wegener's Granulomatosis. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am*. 2008 June; 20(4):643-649.
4. Peters JE, Gupta V, Saeed IT, Offiah C, Jawad ASM. Severe localised granulomatosis with polyangiitis (Wegener's granulomatosis) manifesting with extensive cranial nerve palsies and cranial diabetes insipidus: A case report and literature review. *BMC Neurol*. 2018 April; 18(1):1-13.
5. Phasuk K, Haug SP. Maxillofacial Prosthetics. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am*. 2018; 30(4):487-497.
6. Keyf F. Obturator prostheses for hemimaxillectomy patients. *J Oral Rehabil*. 2001; 28(9):821-829.
7. Ponniah I, Shaheen A, Shankar KA, Kumaran MG. Wegener's granulomatosis: The current understanding. *Oral Surgery, Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endodontology*. 2005 September; 100(3):265-270.
8. Chen C, Ren W, Gao L, et al. Function of obturator prosthesis after maxillectomy and prosthetic obturator rehabilitation. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2016 January; 82(2):177-183.