#### INFORME DE CASO

# MUCORMICOSIS LIMITADA EN EL SENO MAXILAR: A PROPÓSITO DE UN CASO

Infectologia

#### **REVISTA ARGENTINA DE MEDICINA**

ISSN 2618-4311 Buenos Aires Fonseca D, Parada F, Pérez MJ y Montero S. Mucormicosis limitada en el seno maxilar: a propósito de un caso. *Rev Arg Med* 2023;11:209-11 ARK CAICYT: http://id.caicyt.gov.ar/ ark:/s26184311/x8jytxyzu

Recibido: 9 de febrero de 2023. Aceptado: 11 de marzo de 2023.

## LIMITED MUCORMYCOSIS IN MAXILLARY SINUS: ABOUT A CASE

Diego Fonseca (D) 0000-0002-1672-9205, Fernando Parada (D) 0000-0003-1889-245X, María Josée Pérez (D) 0009-0006-3877-7650, Sandra Montero (D) 0000-0002-5443-124X (D)

#### RESUMEN

La mucormicosis engloba un amplio espectro de infecciones del tipo oportunistas causada por hongos de la familia *Mucoraceae, Lichtheimiaceae, Thamnidiaceae, Cunninghamellaceae, Syncephalastraceae* y *Radiomycetaeae*. Se caracteriza por su baja prevalencia, por ser rápidamente progresiva y por su alta mortalidad. Su presentación clínica más frecuente, debido a su dificultad en el diagnóstico, es la rinocerebral de origen paranasal, cuyo síntoma característico es la rinosinusitis aguda bacteriana con proyección a los dientes antrales. A continuación se presenta el caso de una paciente de sexo femenino de 75 años, con antecedentes de diabetes mellitus tipo 2 e hipertensión, quien ingresa al servicio de urgencia por reagudización de un dolor en la hemicara izquierda con dos semanas de evolución, el cual, tras estudio clínico, imagenológico y biopsia, entregó el diagnóstico de mucormicosis del seno maxilar. Este caso tiene por objetivo ilustrar al lector sobre la rareza de presentación de la mucormicosis y la importancia de su sospecha y manejo oportuno.

PALABRAS CLAVE. Mucormicosis, necrosis maxilar, diabetes.

### **ABSTRACT**

Mucormycosis encompasses a broad spectrum of opportunistic infections caused by fungi of the Mucoraceae, Lichtheimiaceae, Thamnidiaceae, Cunninghamellaceae, Syncephalastraceae, and Radiomycetaeae families. It is characterized by its low prevalence, rapid progression and high mortality. Its most frequent clinical presentation, due to its difficulty in diagnosis, is rhinocerebral of paranasal origin, whose characteristic symptom is acute bacterial rhinosinusitis with projection to the antral teeth. The case of a 75-year-old female patient with a history of type 2 diabetes mellitus and hypertension is presented, who was admitted to the emergency service due to exacerbation of pain in the left side of the face with two weeks of evolution. Clinical, imaging and biopsy studies delivered the diagnosis of mucormycosis of the maxillary sinus. This case is intended to illustrate the reader about the rarity of mucormycosis presentation and the importance of its suspicion and timely management.

KEY WORDS. Mucormycosis, maxillary necrosis, diabetes.

Los autores manifiestan no poseer conflictos de intereses.

#### **AUTOR PARA CORRESPONDENCIA**

Diego Fonseca Escobar. Correo electrónico: d.fonsecaescobar@gmail.com

<sup>&</sup>lt;sup>1</sup> Unidad de Emergencia Adulto, Hospital Regional Libertador Bernardo O'Higgins, Chile.

## Introducción

La mucormicosis es una patología de baja prevalencia causada por un amplio espectro de infecciones de tipo oportunista causadas por hongos de la familia *Mucoraceae, Lichtheimiaceae, Thamnidiaceae, Cunninghamellaceae, Syncephalastraceae y Radiomycetaeae,* los cuales presentan hifas hialinas anchas, escasamente tabicadas y reproducción mediante zigospora. Debido a la tendencia de angioinvasión y rápida progresión que presenta esta patología, su diagnóstico habitualmente es tardío, por lo que conlleva altas tasas de mortalidad. Es de mayor incidencia en climas tropicales y en pacientes inmunocomprometidos con patologías predisponentes como diabetes, hepatopatía, falla renal, tuberculosis, tratamiento prolongado de corticoides, abuso de drogas, entre otros; la diabetes descontrolada es la comorbilidad más frecuente en los pacientes con mucormicosis (1).

Actualmente se desconoce la incidencia de la mucormicosis a nivel mundial; sin embargo, los estudios señalan que India es el país con mayor número de reportes de mucormicosis, alcanzando los 140 casos por millón de habitantes (2).

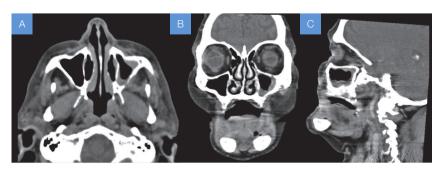
En relación a su clasificación y presentación clínica, se realiza según la estructura y órgano que compromete; la rinocerebral de origen paranasal es la de mayor incidencia, cuya puerta de entrada es habitualmente la naso- y orofaringe, la que se caracteriza por presentar rápido avance debido a la abundante irrigación del macizo facial y alta mortalidad. Esto se debe a que la infección puede avanzar velozmente hacia estructuras intracraneales y presentar síntomas totalmente inespecíficos de la enfermedad, tales como dolor ocular, visión borrosa, cefalea, parestesia facial, fiebre, pérdida de olfato, congestión, secreción nasal, y signos y síntomas que pueden llevar a sospechar rinosinusitis aguda bacteriana con proyección a los dientes antrales, lo cual dificulta su diagnóstico (3,4).

El diagnóstico se realiza mediante el estudio clínico, imagenológico, biopsia del tejido infectado y cultivo biológico de este (1). Debido a que no presenta signos y síntomas patognomónicos y a su rápida invasión y mortalidad, ante la mínima sospecha de mucormicosis, se recomienda la hospitalización del paciente, seguido de un tratamiento empírico con anfotericina B liposomal y biopsia de carácter urgente. Tras el diagnóstico definitivo, el tratamiento puede ser farmacológico o quirúrgico; la resección del tejido infectado es la más habitual debido a su diagnóstico tardío (5).

A continuación se presenta una rara presentación clínica de mucormicosis, la cual comprometía exclusivamente el seno maxilar.

## Presentación del caso

Paciente de género femenino de 75 años de edad ingresa a la unidad de emergencia del Hospital Regional Libertador Bernardo O'Higgins por dolor y aumento de volumen en la hemicara izquierda de dos semanas de evolución; refiere haber presentado, en las semanas previas, lesiones tipo úlcera en la cavidad oral sin sintomatología dolorosa, que desaparecieron. Días más tarde presentó dolor agudo irradiado según la Escala Analógica Visual 10/10 en la hemicara izquierda, que fue tratado en otro centro hospitalario, con el diagnóstico de sinusitis maxilar. Actualmente relata dolor en el lado izquierdo del maxilar con parestesia geniana de ala y dorso nasal, sin compromiso motor. Entre sus antecedentes médicos presenta diabetes mellitus tipo 2 sin control médico, hipertensión, lesión renal aguda AKI KDIGO I, anemia moderada y asma; medicamentos de consumo habitual: furosemida y losartán; presenta alergia a la penicilina. Al momento de ingresar a urgencias, se consignó normotenso, normocárdico, eupnea, 96% de saturación, afebril y hemoglucotest de 173 mg/dl, puntaje en la escala de coma de Glasgow, 15. En el examen físico segmentario dirigido presentó pupilas reactivas isocóricas, aumento del volumen de consistencia dura y parestesia geniana izquierda, mucosa oral hidratada, sin focos infecciosos, cuello simétrico y móvil. No se consignaron ganglios cervicales palpables.



**Figura 1.** Tomografía axial computarizada preoperatoria con contraste, (A) con corte axial, (B) corte coronal, (C) corte sagital.

En urgencias se solicitó una tomografía axial computarizada del macizo facial con contraste (Fig. 1), la cual informa engrosamiento de la mucosa del seno maxilar izquierdo con presencia de calcificaciones mucoperiósticas, esclerosis de sus paredes y obliteración secundaria del complejo osteomeatal izquierdo.

Luego del estudio clínico e imagenológico, se estableció hipótesis diagnóstica de mucormicosis del maxilar y sinusitis crónica del maxilar.

El plan de tratamiento fue hospitalización del paciente con manejo médico-quirúrgico, donde se indicó de forma empírica anfotericina B liposomal 300 mg endovenosa (EV) por día, ceftriaxona 1 g cada 12 horas EV, y metronidazol 500 mg cada 8 horas, estabilización de patologías de base e interconsulta para cirugía maxilofacial.

Tras la evaluación al día siguiente por cirugía maxilofacial, se decidió realizar biopsia rápida incisional del seno maxilar comprometido, la cual confirmó el diagnóstico de mucormicosis del seno maxilar. Recibió tratamiento médico-quirúrgico, manteniendo el tratamiento farmacológico y la resección en bloque del seno maxilar y posterior reconstrucción.

## Discusión

Son escasos los reportes de mucormicosis que comprometan exclusivamente el seno maxilar; esto se debe a su rápida progresión y sintomatología inespecífica, lo que dificulta su diagnóstico y manejo. La mucormicosis tipo rinocerebral o sino-orbital es de mayor incidencia en el territorio maxilofacial de los pacientes diabéticos —especialmente aquellos que están mal controlados—, que puede comprometer la órbita o el sistema nervioso central con compromiso de la visión y oftalmoplejía. La rápida progresión de esta patología puede diseminarse intracranealmente y causar abscesos o trombosis del seno sagital (6).

La mucormicosis tiene una presentación clínica y radiográfica muy similar a otras afecciones que pueden superponerse. Cornely y colaboradores establecen un algoritmo de diagnóstico ante la sospecha de mucormicosis, en el que la histopatología es el método de referencia para el diagnóstico definitivo (1).

Las nuevas formulaciones de anfotericina B, como la anfotericina B liposomal, tienen alto éxito en el tratamiento de la mucormicosis. Los azoles, como el isavuconazol y el posaconazol, son una alternativa atractiva para el tratamiento de la mucormicosis en el manejo temprano de la patología. En casos más avanzados se sugiere la resección de las estructuras comprometidas y manejo farmacológico (1).

## Conclusión

La mucormicosis es una infección fúngica oportunista que afecta principalmente a pacientes con el sistema inmunológico disminuido. Al ser una patología de rápida evolución y alta mortalidad, es fundamental un diagnóstico temprano y establecer protocolos de atención ante la sospecha de esta, con el fin de obtener un oportuno diagnóstico y el manejo médico quirúrgico de tipo interdisciplinario con el fin de controlar los riesgos del paciente y mejorar su pronóstico. Ante la sospecha del compromiso del seno maxilar en un paciente inmunocomprometido, se sugiere el manejo médico empírico de la mucormicosis hasta la confirmación de esta, ya que puede ser el diagnóstico temprano de la patología. Esto se debe a que el tratamiento oportuno permite disminuir la tasa de mortalidad.

## Referencias bibliográficas

- Cornely OA, Alastruey-Izquierdo A, Arenz D, et al. Mucormycosis ECMM MSG Global Guideline Writing Group. Global guideline for the diagnosis and management of mucormycosis: an initiative of the European Confederation of Medical Mycology in cooperation with the Mycoses Study Group Education and Research Consortium. *Lancet Infect Dis* 2019 12;19:e405-e421. doi: 10.1016/S1473-3099(19)30312-3
- Jeong W, Keighley C, Wolfe R, et al. The epidemiology and clinical manifestations of mucormycosis: a systematic review and meta-analysis of case reports. Clin Microbiol Infect 2019;25:26-34
- Jeong W, Keighley C, Wolfe R, et al. Contemporary management and clinical outcomes of mucormycosis: A systematic review and meta-analysis of case reports. Int J Antimicrob Agents 2019;53:589-97
- Pal R, Singh B, Bhadada SK, et al. Covid-19-associated mucormycosis: An updated systematic review of literature. Mycoses 2021;64:1452-9
- Cho HS, Yang HS, Kim KS. Mucormycosis (Mucor fungus ball) of the maxillary sinus. Ear Nose Throat J 2014;93:E18-E22
- 6. Saran S, Sharma Y, Khanna T, Singh AP. Maxillary mucormycosis causing oroantral fistula in a young female. Ann Afr Med 2019;18:211-3