



ISSN: 2230-9926

Available online at <http://www.journalijdr.com>

# IJDR

International Journal of Development Research

Vol. 12, Issue, 04, pp. 55710-55715, April, 2022

<https://doi.org/10.37118/ijdr.24415.04.2022>



RESEARCH ARTICLE

OPEN ACCESS

## MAXILECTOMIA SEGUIDA DE REABILITAÇÃO ORAL NO TRATAMENTO DE MUCORMICOSE RINOMAXILAR COM ACOMPANHAMENTO DE 5 ANOS: RELATO DE CASO

José Carlos Garcia de Mendonça<sup>1</sup>, Amauri Ferrari Paroni<sup>2</sup>, Gustavo Silva Pelissaro<sup>3</sup>, Ellen Cristina Gaetti Jardim<sup>4</sup>, Júlio Cesar Leite da Silva<sup>5</sup>, Janayna Gomes Paiva Oliveira<sup>6</sup>, Juliana Pedroso de Mendonça Magariños<sup>7</sup> and Fernando Roberto Ferreira Valente<sup>8</sup>

<sup>1</sup>Doutor em Ciências da Saúde pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul - UFMS. Professor associado na disciplina CTBMF da Faculdade de Odontologia da UFMS. Coordenador e chefe do serviço de residência em CTBMF do Humap/Ebserh/UFMS; <sup>2</sup>Especialista em Cirurgia de Cabeça e Pescoço. Membro do corpo clínico do Humap/Ebserh/UFMS; <sup>3</sup>Mestre em CTBMF, Cirurgião Buco-Maxilo-Facial do Humap/Ebserh/UFMS. Preceptor da residência em CTBMF do Humap/Ebserh/UFMS; <sup>4</sup>Doutora em CTBMF - Unesp. Professora adjunta na Faculdade de Odontologia - UFMS. Preceptora da residência em CTBMF - Humap/Ebserh/UFMS; <sup>5</sup>Doutor em Farmacologia, Anestesiologia e Terapêutica - FOP - Unicamp. Professor Associado na Faculdade de Odontologia - UFMS. Preceptor da residência em CTBMF - Humap/Ebserh/UFMS. <sup>6</sup>Doutora em Ciências da Saúde pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul - UFMS. Cirurgiã Buco-Maxilo-Facial do Humap/Ebserh/UFMS. Preceptora da residência em CTBMF; <sup>7</sup>Doutora em Ciências da Saúde pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul - UFMS. Cirurgiã Dentista especialista em Prótese Dentária; <sup>8</sup>Cirurgião Dentista especialista em Radiologia Oral & Maxilofacial - FOP - Unicamp

<sup>1</sup>Doutor em Ciências da Saúde pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul - UFMS. Professor associado na disciplina CTBMF da Faculdade de Odontologia da UFMS. Coordenador e chefe do serviço de residência em CTBMF do Humap/Ebserh/UFMS; <sup>2</sup>Especialista em Cirurgia de Cabeça e Pescoço. Membro do corpo clínico do Humap/Ebserh/UFMS; <sup>3</sup>Mestre em CTBMF, Cirurgião Buco-Maxilo-Facial do Humap/Ebserh/UFMS. Preceptor da residência em CTBMF do Humap/Ebserh/UFMS; <sup>4</sup>Doutora em CTBMF - Unesp. Professora adjunta na Faculdade de Odontologia - UFMS. Preceptora da residência em CTBMF - Humap/Ebserh/UFMS; <sup>5</sup>Doutor em Farmacologia, Anestesiologia e Terapêutica - FOP - Unicamp. Professor Associado na Faculdade de Odontologia - UFMS. Preceptor da residência em CTBMF - Humap/Ebserh/UFMS. <sup>6</sup>Doutora em Ciências da Saúde pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul - UFMS. Cirurgiã Buco-Maxilo-Facial do Humap/Ebserh/UFMS. Preceptora da residência em CTBMF; <sup>7</sup>Doutora em Ciências da Saúde pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul - UFMS. Cirurgiã Dentista especialista em Prótese Dentária; <sup>8</sup>Cirurgião Dentista especialista em Radiologia Oral & Maxilofacial - FOP - Unicamp

### ARTICLE INFO

#### Article History:

Received 19<sup>th</sup> January, 2022

Received in revised form

20<sup>th</sup> February, 2022

Accepted 17<sup>th</sup> March, 2022

Published online 30<sup>th</sup> April, 2022

#### Key Words:

Mucormicose,  
Diabetes tipo 2,  
Maxilectomia,  
Reabilitação bucal.

#### \*Corresponding author:

José Carlos Garcia de Mendonça

### ABSTRACT

A mucormicose é um tipo de infecção fúngica oportunista relatada primeiramente por Paultauf em 1885, na qual acomete geralmente indivíduos imunossuprimidos como diabéticos descompensados. Representada como terceira infecção fúngica angioinvasiva mais comum, afeta uma grande faixa etária, sem predileção por gênero ou raça e com mortalidade em torno de 50% a 85%. A princípio inicia-se como uma infecção no nariz e seios paranasais, devido à inalação dos esporos do mesmo, podendo-se espalhar pela órbita e estruturas intracranianas, quer seja por invasão direta ou através de vasos sanguíneos com invasão de artérias principais. As características clínicas precoces incluem parestesia perinasal, celulite periorbitária, rinorréia, obstrução nasal com congestão e epistaxe com ou sem queixa de febre, artralgia e baixo peso. O tratamento efetivo dessa comorbidade é através de uma combinação de manejo clínico e medicamentoso, como correção da anormalidade sistêmica, por exemplo, controle do estado de diabetes, paralisação ou modificação de imunossuppressores ou corticosteroides, conjuntamente com desbridamento cirúrgico radical do tecido infectado, necrótico e pela administração sistêmica de altas doses de anfotericina B ou uma de suas formulações lipídicas. O caso clínico descrito nesse trabalho refere-se a uma paciente diabética do tipo 2 diagnosticada com Mucormicose rino maxilar, na qual foi submetida a procedimento cirúrgico de maxilectomia do lado esquerdo com posterior reabilitação protética.

Copyright © 2022, José Carlos Garcia de Mendonça et al. This is an open access article distributed under the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Citation: José Carlos Garcia de Mendonça, Amauri Ferrari Paroni, Gustavo Silva Pelissaro, Ellen Cristina Gaetti Jardim et al. "Maxilectomia seguida de reabilitação oral no tratamento de mucormicose rinomaxilar com acompanhamento de 5 anos: relato de caso", *International Journal of Development Research*, 12, (04), 55710-55715.

## INTRODUCTION

A mucormicose (MM) é um tipo de infecção fúngica oportunista relatada primeiramente por Paultauf em 1885, na qual acomete geralmente indivíduos imunossuprimidos como diabéticos descompensados, devido a habilidade de produzir enzima cetonedutase, na qual mais tarde utiliza corpos cetônicos do paciente para a própria nutrição do fungo e também pacientes com doenças hematológicas malignas como leucemia ou ainda aqueles que estão em terapia imunossupressora (Neville *et al.*, 2016; Aguilar *et al.*, 2018). Representada como terceira infecção fúngica angioinvasiva mais comum após a *Candida* e *Aspergillus*. É uma infecção invasiva, oportunista e potencialmente fatal, tipicamente causada por agentes da ordem fúngica Mucorales como *Rhizopus* e *Mucor* (Hibbett *et al.*, 2007; Sahota *et al.*, 2017; da Costa *et al.*, 2018).

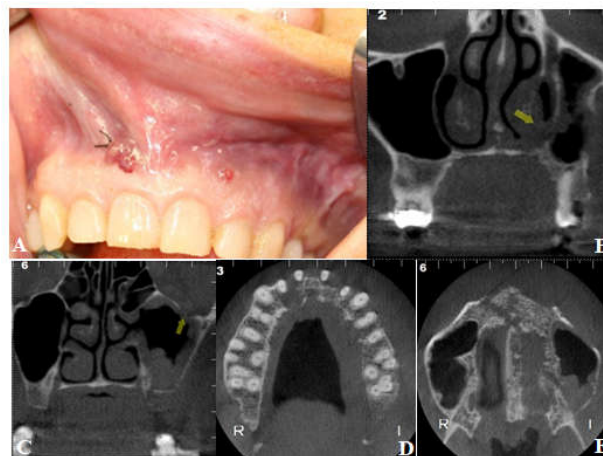
O *Rhizopus oryzae* é o microrganismo mais frequentemente isolado em doentes com MM, sendo responsável por cerca de 70% dos casos (Rodenet *et al.*, 2005). O fungo responsável por tal comorbidade, encontra-se frequentemente no solo, em estrume, vegetais, frutas e até mesmo em pão mofado (Xavier *et al.*, 2004; Aguilar *et al.*, 2018). Baseada na apresentação clínica e no sítio anatômico, a MM pode ser dividida em pelo menos seis categorias clínicas como rinorinorbito-cerebral, cutânea, pulmonar, disseminada e gastrointestinal (Aguilar *et al.*, 2018). A princípio inicia-se como uma infecção no nariz e seios paranasais, devido a inalação dos esporos do mesmo, podendo-se espalhar para a órbita e estruturas intracranianas quer seja por invasão direta ou através de vasos sanguíneos com invasão de artérias principais, formando trombos que subsequentemente causa necrose de tecido moles e duros (Rani *et al.*, 2019).

A mucormicose rinocerebral (MRC) é a mais comum e geralmente apresenta-se como mal-estar, dor de cabeça, dor facial, inchaço e baixo grau de febre. Geralmente começa na mucosa nasal ou no palato, estendendo-se para os seios paranasais e vasos circundantes, originada pela disseminação da infecção onde a porta de entrada é pela inalação (geralmente através do nariz) ou pode também resultar da contaminação direta da ferida. Quando surge no nariz e seios paranasais a infecção pode causar ulceração palatal progredindo para necrose (Xavier *et al.*, 2004). O diagnóstico é baseado em achados histológicos com presença de necrose, várias hifas grandes, ramificadas e não septadas na periferia, na qual radiograficamente observa-se uma opacificação dos seios da face junto com o apagamento regular de suas paredes ósseas (Neville *et al.*, 2016). A grande destruição e necrose tecidual associadas a essa doença são indubitavelmente atribuíveis a preferência do fungo pela invasão dos pequenos vasos sanguíneos alterando o fluxo sanguíneo ocasionando necrose do mesmo cujo tratamento e o prognóstico depende de quão rápido ele é feito (Xavier *et al.*, 2004; Rani *et al.*, Stace *et al.*, 2019).

O tratamento efetivo se dá através de uma combinação de manejo clínico e medicamentoso, como correção da anormalidade sistêmica, por exemplo, controle do estado de diabetes, paralisção ou modificação de imunossupressores ou corticosteroides, conjuntamente com desbridamento cirúrgico radical do tecido infectado necrótico e pela administração sistêmica de altas doses de anfotericina B. No entanto, altas doses é consideravelmente nefrotóxica. A associação de anfotericina B com sulfato de colesterol, conhecido como anfotericina B lipossomal é uma formulação capaz de liberar doses elevadas da droga com reduzida nefrototoxicidade devido a alteração na distribuição farmacológica, sendo assim uma opção no tratamento da mucormicose em pacientes refratários ao tratamento convencional (Xavier *et al.*, 2004; Miloro *et al.*, 2016). A proposta deste trabalho é descrever um caso clínico de uma paciente de 50 anos de idade, diabética tipo 2, diagnosticada com mucormicose que acometeu a maxila, seio maxilar e seio etmoide. Foi submetida ao procedimento cirúrgico de maxilectomia do lado esquerdo com posterior reabilitação protética, com acompanhamento de 5 anos sem recidiva.

## Metodologia e Relato de Caso

Paciente AAGLN, leucoderma, gênero feminino, 50 anos de idade, trabalhadora doméstica, procurou atendimento médico no Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian - Humap/Ebserh/UFMS, queixando-se de dor forte em hemiface esquerda que se iniciou há aproximadamente 40 dias da consulta. Desde então, todos os seus dentes do lado esquerdo da maxila estavam amolecendo e havia saída de pus de sua gengiva ipsilateral. Disse que sentia o céu de sua boca inchado e o mesmo estava avermelhado e seu nariz estava entupido. Informou ser hipertensa há aproximadamente 5 anos e fazer uso diário de anti-hipertensivo. Negou outras comorbidades tais como diabetes, doenças alérgicas, cardiopatias ou outras. Negou ainda não fazer uso de tabaco, álcool ou drogas ilícitas. No exame clínico extraoral observou-se discreta assimetria facial do lado esquerdo, com a pele da região sem ulcerações ou alterações de cor. O exame clínico intraoral revelou diversas fistulas gengivais ativas nas regiões dos elementos dentários 12e 11 e entre os elementos dentários 21 e 22. Os dentes 13, 12, 11, 21, 22, 23, 24, 25, 26 e 27, encontravam-se com diferentes graus de mobilidade. Havia alteração de cor de toda região palatina esquerda, e a mesma encontrava-se edemaciada e dolorida ao toque digital. Solicitou-se exames de imagens com objetivo de auxiliar no diagnóstico. A Tomografia Computadorizada (TC) nos planos axial, sagital e coronal, revelou severa lesão óssea, com aspecto de malignidade, necrose óssea, irregularidade e ausência das corticais ósseas. Revelou ainda, alteração do trabeculado ósseo, desde a região anterior, área do canino direito, até a região posterior esquerda, distalmente ao dente 27, envolvendo o túber da maxila, com avulsão dos dentes envolvidos, e envolvimento parcial da cortical da fossa nasal e assoalho da órbita esquerda com comprometimento do seio maxilar e fossa nasal (Figuras 1).

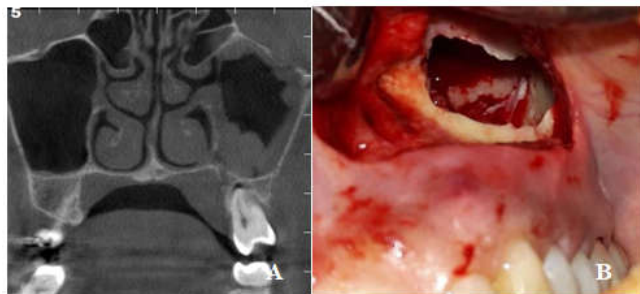


Fonte: autores

**Figura 1. A. Aspecto clínico intraoral onde se observa a presença de fistulas gengivais nas regiões dos elementos dentários 12 e 11 e no espaço entre os dentes 21 e 22. B e C: TC plano coronal onde se observa erosão da parede lateral do nariz, palato duro e do assoalho de órbita esquerdos. Notar espessamento mucoso do seio maxilar esquerdo revelando sinusite. D e E: TC plano axial evidenciando elementos dentários envolvidos sem sustentação óssea. Severa lesão óssea com aspecto de malignidade**

Diante do exposto, o diagnóstico presuntivo foi firmado em rinosinusite maxilar, neoplasia maligna e infecção sinusal fulminante. Pelo histórico da paciente a evolução da doença foi muito rápida, pois, a mesma sentiu os primeiros sintomas há apenas 40 dias da consulta. A paciente foi internada no hospital e iniciou-se a antibioticoterapia empiricamente para rinosinusite bacteriana grave com Ceftriaxona em associação com Metronidazol, por via intravenosa (IV), junto aos demais cuidados. Os achados laboratoriais mostraram uma glicemia de 420mg/dL, PCR 15,05, hemograma, creatinina e ureia sem alterações. Solicitou-se parecer e conduta à equipe da endocrinologia no sentido de apoio clínico no que tange à hiperglicemia.

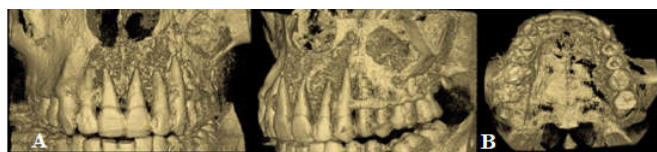
Solicitou-se o exame de hemoglobina glicada para investigar diabetes. O resultado do exame mostrou uma hemoglobina glicada no valor de 8%, firmando o diagnóstico de diabetes mellitus tipo 2. Faz-se necessário ressaltar que a paciente não tinha conhecimento da doença. Optou-se por realizar a biópsia incisional, sob anestesia local, da mucosa do seio maxilar e do tecido ósseo subjacente. O diagnóstico anatomopatológico foi firmado em sinusopatia por infecção fúngica do grupo *Mucor* (Figura 2).



Fonte: autores

**Figura 2. A:** TC plano coronal onde se observa hiperdensidade do seio maxilar E, comprometimento do etmóide e fossa nasal ipsilateral. **B:** Sinusectomia transmaxilar para biópsia incisional da mucosa do seio maxilar esquerdo, onde se observa material necrótico

Desta forma, iniciou-se o tratamento com anfotericina B clássica em altas doses diárias, de 1,0 mg/kg/dia, de acordo com o que a literatura sugere. O caso foi discutido entre as equipes da cirurgia de cabeça e pescoço e buco-maxilo-facial, para se realizar urgentemente o desbridamento cirúrgico. Para tanto, seria primordial o controle da doença de base, que nesse caso, seria a normalização dos níveis glicêmicos da paciente. Solicitou-se novos exames de imagens, tais como: TC 3D e TC convencional, fundamentais para se definir a extensão da lesão e realizar o procedimento operatório. A TC cone beam volumétrica frontal revelou grande destruição óssea da região anteroposterior da maxila esquerda, ultrapassando a linha média contralateral, como elementos dentários envolvidos sem suporte ósseo. Na vista ¾ revelou também severa destruição da maxila esquerda e o defeito ósseo na parede anterior do seio maxilar esquerdo, oriundo da sinusectomia transmaxilar realizada para se fazer a biópsia. Na vista oclusal revelou extensas áreas de erosões ósseas envolvendo o palato duro (Figura 3).



Fonte: autores

**Figura 3. TC cone beam volumétrica. A:** Visão frontal onde se observa extensa destruição anteroposterior da maxila esquerda e dentes acometidos sem suporte ósseo. **B:** Visão ¾ que mostra o defeito ósseo criado na parede anterior do seio maxilar esquerdo, que deu acesso à biópsia. **C:** Vista oclusal revelando áreas de erosões ósseas envolvendo a porção anterior, média e posterior do palato duro esquerdo

A paciente e seus familiares foram informados da necessidade da intervenção cirúrgica o mais rápido possível, devido a gravidade do caso em particular. O tratamento desta situação seria agressivo, atendendo ao seu caráter letal, envolvendo o tratamento da causa subjacente (diabetes). Foram informados também que no procedimento operatório seria necessário realizar uma hemimaxilectomia ou maxilectomia subtotal, devido à grande destruição óssea causada pela doença. Assim, a paciente foi preparada e submetida ao desbridamento cirúrgico sob anestesia geral com intubação orotraqueal. Realizou-se a antisepsia bucal e facial de maneira usual com clorexidina aquosa a 2%. Seguiu-se com aposição dos campos e um tampão de gaze foi posicionado na orofaringe. Optou-se por se fazer o acesso cirúrgico intraoral pela técnica da

osteotomia total da maxila tipo Le Fort I. Alguns minutos antes da incisão 10 ml de solução de anestésico local (mepivacaína associada a adrenalina 1:100.000), foi distribuída igualmente por infiltração nas regiões do fundo de vestibulo superiores, com o objetivo de se obter uma melhor hemostasia. Realizou-se uma incisão com lâmina de bisturi nº.15, no fundo do sulco, do segundo molar esquerdo ao segundo pré-molar oposto. Após a incisão do muco-periósteo e utilizando-se de um descolador, elevou-se todo tecido muco-periosteal da parede anterior lateral da maxila. A elevação superior se deu até a visualização do nervo infraorbitário. A mucosa nasal foi descolada ao longo da abertura piriforme e do assoalho da fossa nasal. Procedeu-se uma osteotomia segmentada da maxila se estendendo desde a região do túber da maxila esquerda, cruzando a linha média, até a distal do dente canino direito. Posteriormente, por margem de segurança, decidiu-se estender a osteotomia até a distal do dente 14. Realizou-se a osteotomia no palato, o que possibilitou a remoção de 2/3 da maxila envolvida. Ainda na sala de operação realizou-se a sondagem nasoenteral com o intuito de facilitar a alimentação da paciente (Figuras 4 e 5).



**Figura 4. A:** Visão macroscópica dos 2/3 da maxila removida, que ultrapassou a linha média até o limite dos dentes 13 e 14. Notar a boa conservação dos elementos dentários. **B:** Maxila E após a retirada da fibromucosa palatina onde se observa o comprometimento do palato duro



Fonte: autores

**Figura 5. A:** Aspecto clínico transoperatório onde se observa fistula buco-naso-sino-etmoidal. Preservou-se os elementos dentários 15, 16 e 17. **B:** TC 3D do posoperatório imediato, onde se observa a magnitude da ressecção óssea. Notar a presença da sonda nasoenteral

A paciente evoluiu bem no pós-operatório imediato, sem apresentar complicações. Permaneceu internada por 29 dias, medicada com Anfotericina B, sob controle clínico e bioquímicos rigorosos, quanto aos possíveis efeitos colaterais e toxicidade renal e hepática. Após a alta fez uso da Anfotericina B uma vez por semana associada a Teicoplanina por 30 dias, de acordo com o protocolo da equipe de infectologia do hospital. Permaneceu com a sonda nasoenteral por cerca de 60 dias. Nesse período foi monitorada e orientada semanalmente pelas equipes multidisciplinares do Humap, quanto aos cuidados e eventuais efeitos adversos das medicações que poderiam ocorrer. Quarenta e cinco dias do pós-operatório a paciente encontrava-se bem e sem sinais da doença, constatado através dos exames clínico e de imagem (Figura 6). A paciente foi reabilitada com prótese parcial removível obturadora aos 5 meses do posoperatório (Figura 7). Há 5 anos encontra-se sob rigoroso controle clínico e de imagem. À medida que a prótese obturadora perde sua estabilidade devido à contração dos tecidos moles em torno da fistula (fibrose), é necessário se fazer a troca da mesma.



Fonte: autores

**Figura 6. Pós-operatório de 45 dias. A: Aspecto clínico frontal, onde se observa depressão dos tecidos do lábio superior e por falta de suporte ósseo. B: Aspecto clínico intraoral onde se observa bom aspecto cicatricial dos tecidos. C: TC plano coronal, revela o bom resultado da ressecção óssea, sem evidências da doença**

Nesse período de 5 anos foram realizadas as trocas da prótese por duas vezes. A paciente até a presente data encontra-se satisfeita com os resultados estético e funcional, e os exames de imagens não revelaram quaisquer alterações ou indícios de recidiva da doença, sendo considerada curada da mesma (Figura 8).

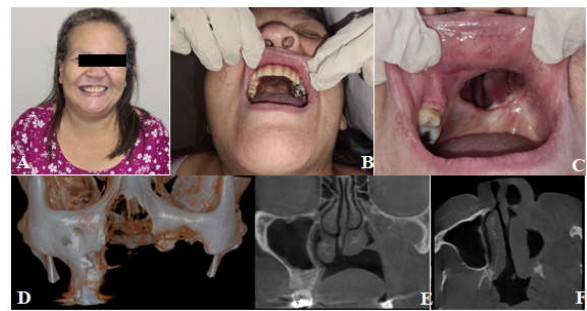


**Figura 7. Cinco meses pós-operatório. A: Aspecto clínico extraoral onde se observa assimetria facial por depressão dos tecidos moles pela falta de suporte ósseo na maxila. B: Bom aspecto cicatricial da fistula. C: Prótese parcial removível obturadora. D: Prótese obturadora instalada. E: TC no plano axial revela bom aspecto cicatricial dos tecidos remanescentes, sem sinais de recidiva da doença**

Os elementos dentários remanescentes (15, 16 e 17) encontram-se sensíveis e com discreta mobilidade devido ao excesso de carga mastigatória impostas aos mesmos. Atualmente sua doença de base está bem controlada e a paciente faz uso de enalapril 10 mg por dia, metformina 500mg no almoço e no jantar.

## DISCUSSÃO

Dentre as várias infecções fúngicas existentes, a mucormicose (MM) é uma infecção fúngica profunda, incomum e de maior mortalidade, quando comparada a outras. O fungo causador da doença pertence ao grupo Mucorales, o qual apresenta mais de 30 espécies, sendo mais comuns *Rhizopus arrhizus* e *Rhizopus microsporus* como agentes etiológicos (Skiada *et al.*, 2018). São saprófitas frequentemente encontrados no solo, material vegetal em decomposição e nos indivíduos saudáveis nos tubos respiratório e digestivo. A sua distribuição é ubiqüitária (Tryfon *et al.*, 2002; da Costa *et al.*, 2018). Desta forma, o contato do ser humano com tais esporos fúngicos é muito comum. A MM é uma infecção fúngica aguda mais fatal para o ser humano, com uma taxa de mortalidade global de 25 a 62%, podendo chegar aos 76% para as infecções pulmonares e aos 96% para as formas disseminadas (Roden *et al.*, 2005; da Costa *et al.*, 2018). A MM pode apresentar como a forma rinocerebral, pulmonar, cutânea, gastrointestinal e disseminada. A forma mais comum é a rino-cerebral (MRC), que está associada à cetoacidose diabética.



Fonte: autores

**Figura 8. Controle de 5 anos. A: Vista frontal com resultado estético satisfatório. B: Vista intraoral com a prótese obturadora posicionada. C: Fístula buco-naso-sino-etmoidal normocorada com bom aspecto cicatricial. D: TC cone beam 3D da maxilectomia. E: TC no plano coronal e Fno plano axial, revelam normalidade óssea e dos tecidos moles, sem sinais de recidiva da doença**

Inicia-se na mucosa nasal e seios paranasais e eventualmente pode estender-se para a órbita e cérebro, cuja progressão dependerá do estado imunológico e metabólico dos pacientes e tempo de diagnóstico (Severo *et al.*, 2002; Haber *et al.*, 2008; Bosil *et al.*, 2012; Antunes *et al.*, 2015). No presente relato de caso, a paciente era portadora de diabetes mellitus tipo 2 descontrolada e não tinha conhecimento de sua doença e o diagnóstico foi precoce. De acordo com alguns autores, o fungo invade a mucosa nasal, seguido dos seios da face, acompanhado de erosão em palato duro, órbita, chegando ao encéfalo através da lâmina cribiforme ou por trombose arterial do SNC (Haber *et al.*, 2008; Vilela *et al.*, 2013; Lamet *et al.*, 2019; Montezzi *et al.*, 2020). No caso relatado houve invasão do fungo que acometeu a fossa nasal esquerda, os seios maxilar e etmoidal, erosão do palato duro e assoalho orbitário ipsilateral, sem comprometimento encefálico, revelados pelos exames de imagens. Yohia *et al.* (1994), num estudo de 208 casos concluíram que os principais sinais e sintomas da MRC foram: febre, necrose ou úlcera nasal, edema facial ou periorbital, redução da acuidade visual, oftalmoplegia, sinusite e cefaleia. Podendo aparecer também súbita dor facial ou orbital unilateral, obstrução e secreção nasal necrótica, evoluindo com lesão lítica na mucosa, celulite orbitária, amaurose e anestesia de córnea. Porém, nem todos os fenômenos descritos estão presentes ou seguem a sequência descrita. Quando a MRC se manifesta na cavidade oral, o local mais atingido é o palato duro, com aparecimento de placas escuras no mesmo, de acordo com a literatura. As lesões intraorais provocam necrose tecidual progressiva (Kmengji *et al.*, 2016; Cheong *et al.*, 2017). Apesar de raro, pode haver envolvimento gengival, com ulceração, evoluindo para destruição óssea e perda dos dentes (Epstein *et al.*, 2016; Kmengji *et al.*, 2016).

No presente relato de caso, a paciente negou ter tido febre, não se pôde observar necrose ou úlcera nasal, assim como, oftalmoplegia ou redução da acuidade visual. Os principais sinais e sintomas observados e/ou relatados pela paciente foram: dor facial súbita unilateral esquerda, sinusite, obstrução nasal ipsilateral, acometimento das estruturas ósseas adjacentes, como palato duro e rebordo alveolar, severas mobilidades dentárias, fistulas gengivais com saída de exsudato purulento. Nesses casos, biópsias da mucosa sinusal ou tecidos espessados envolvidos devem ser realizadas. A biópsia incisiva da mucosa do seio maxilar do presente caso firmou o diagnóstico em sinusopatia por infecção fúngica do grupo Mucor. De acordo com alguns autores a identificação da espécie causal nem sempre é possível, sendo estimada em 30% dos cultivos positivos, a partir de fragmentos obtidos de espécimes cirúrgicos (Kara *et al.*, 2009; Antunes *et al.*, 2015). O tratamento padrão ouro na literatura para a MM se baseia no diagnóstico precoce, desbridamento cirúrgico agressivo e o uso de anfotericina B em doses elevadas (0,8 a 1,5 mg/kg/dia), ou uma de suas formulações lipídicas (Xavier *et al.*, 2004; Skiada *et al.*, Dolatabadiet *et al.*, 2018; Rani *et al.*, 2019). A anfotericina B em altas doses é potencialmente nefrotóxica e a sua associação com sulfato de colesterol, chamada de anfotericina B lipossomal.

Leenders *et al.* (1998) realizaram um estudo comparativo da eficácia da anfotericina B lipossomal e a anfotericina B não lipossomal, e encontraram resultados superiores naqueles pacientes tratados com a primeira delas. A anfotericina B lipossomal é uma formulação capaz de liberar doses elevadas da droga com reduzida nefrotoxicidade, porém, é uma medicação cara e de difícil aquisição (Montezzi *et al.*, 2020). Faz-se necessário ressaltar que a anfotericina B pode não ser bem tolerada por alguns indivíduos devido aos seus efeitos colaterais, como náuseas, mal estar, perda de peso e a necessidade de cuidados hospitalares.

Assim, outros fármacos foram introduzidos como opções de tratamento, como posaconazol e isavuconazol, que potencialmente apresentam menos efeitos colaterais (Alfano *et al.*, 2018; Prabhu *et al.*, 2018). A paciente deste relato foi tratada com anfotericina B por um longo período de tempo e não apresentou quaisquer efeitos colaterais e/ou toxicidade relacionados à droga. O procedimento de maxilectomia normalmente causa grandes defeitos e perturbações ao paciente. Geralmente ocorre uma comunicação buco-naso-sinotomoidal e uma assimetria facial importante pela depressão da projeção maxilar (Barrak *et al.*, 2007). Desta forma, é importante a reabilitação do sistema estomatognático, para oferecer conforto, função e estética ao paciente. A reabilitação deverá ser realizada somente após a total cicatrização dos tecidos, confeccionando uma prótese obturadora definitiva, com os objetivos de se criar um selamento entre a cavidade bucal e proteger as regiões quanto aos traumas, impactação alimentar e desconforto. Além disso, objetiva substituir artificialmente as partes ausentes, proporcionar melhor fonação, deglutição, estética e a autoestima, reintegrando o indivíduo na sociedade (Shibayama *et al.*, 2016; Domingues *et al.*, 2016). A paciente desse estudo foi primeiramente reabilitada com prótese obturadora parcial removível aos 5 meses do procedimento operatório, após a completa cicatrização dos tecidos, corroborados pelo exame clínico e de imagens, e os resultados foram satisfatórios. A prótese obturadora proporcionou a devolução da estética, o selamento do defeito criado, a funcionalidade do sistema estomatognático, a fonação adequada, e principalmente, elevou a autoestima da paciente reintegrando a mesma na sociedade.

### Considerações Finais

A mucormicose (MM) é uma doença de rápida evolução e potencialmente letal. Cabendo ao paciente e ao profissional envolvido buscarem o diagnóstico precoce para que seu tratamento, direcionado e individualizado, seja efetivo. A forma mais comum da MM é a rinocerebral (MRC), que está associada à cetoacidose diabética. A paciente do caso relatado era portadora de diabetes mellitus e não tinha conhecimento de sua doença de base. O fungo invade a mucosa nasal, seguido dos seios da face, acompanhado de erosão em palato duro. Nesses casos pode haver envolvimento gengival, com ulceração, evoluindo para destruição óssea e perda dos dentes. No caso em questão, a paciente apresentou envolvimento gengival sem ulcerações, porém, com presença de fistulas e destruição óssea com perdas dentárias. Após a realização de uma maxilectomia é de suma importância a reabilitação do sistema estomatognático para ofertar conforto, função, estética e devolver a autoestima do paciente, reintegrando o mesmo na sociedade.

### Agradecimentos

O presente trabalho foi realizado com apoio da Fundação Universidade Federal de Mato Grosso do Sul – UFMS/MEC – Brasil.

## REFERÊNCIAS

Alfano, G., *et al.* Gastric Mucormycosis in a Liver and Kidney Transplant Recipient: case Report and Concise Review of Literature. *Transplantation proceedings*. v. 50, n. 3, 905-909, 2018.

- Aguilar, E.C., *et al.* An Emergent Entity: Indolent Mucormycosis of the Paranasal Sinuses. A Multicenter Study. *International Archives of Otorhinolaryngology*. v. 23 n. 1, 2018.
- Antunes, A.F., *et al.* Mucormicose rinocerebral: relato de caso. *Revista HUGV - Revista do Hospital Universitário Getúlio Vargas*. v.14. n.2 jul./dez. – 2015.
- Barrak, H.A. Hard palate perforation due to mucormycosis: report of four cases. *The Journal of Laryngology & Otology*. 2007.
- Bosil, G., *et al.* Bola fúngica dos seios paranasais: Relato de dois casos e revisão de literatura. *Int. Arch. Otorhinolaryngol.* 2012.
- Cheong, H.S, Kim, S.Y, Ki, H.K, Kim, J.Y, Lee, M.H. Oral mucormycosis in patients with haematologic malignancies in a bone marrow transplant unit. *Mycoses*. v. 60, n. 12, p. 836-841, 2017.
- da Costa, J.B., *et al.* Mucormicose maxilar em doente imunocompetente: caso clínico. *Acta Otorrinolaringology*. Gallega. v. 11, n. 1, p. 175-183, 2018.
- Dolatabadi, S., Ahmadi, B., Rezaei-Matehkolaei, A., Zarrinfar, H., Skiada, A., Mirhendi H.; *et al.* Mucormycosis in Iran: a six-year retrospective experience. *Journal de mycologie medicale*. v. 12, march, 2018.
- Domingues, J.M., Corrêa, G., Fernandes Filho, R.B., Hosni, E.S. Palatal obturator prosthesis: case series. *RGO, Revista Gaúcha de Odontologia*, Porto Alegre, v.64, n.4, p. 477-483, out./dez., 2016.
- Epstein, J.B., Kupferman, S.B., Zabner, R., Rejali, A., Hopp, M.L., Lill, M.; *et al.* Early diagnosis and successful management of oral mucormycosis in a hematopoietic stem cell transplant recipient: case report and literature review. *Supportive Care in Cancer*. v. 24, n. 8, p. 3343-3346, 2016.
- Haber, D.M., Fernandes, A.M., Santi Neto, D., Schiavetto, R.R. Mucormicose Rino-Órbita-Cerebral Associada com Trombose do Seio Cavernoso: Relato de Caso. *Arquivos Internacionais de Otorrinolaringologia/International Archives of Otorhinolaryngology*, São Paulo. v.12, n.4, p. 574-578, 2008.
- Hibbett, D.S., Binder, M., Bischoff, J.F.; *et al.* A higher-level phylogenetic classification of the Fungi. *Mycology Research*. v. 111, n. 5, p. 509-547, 2007.
- Kara, I.O., Tasova, Y., Uguz, A., Sahin, B. Mucormycosis-associated fungal infections in patients with haematologic malignancies. *International Journal of Clinical Practice*. v. 63, n. 1, 134-9, 2009.
- Kmengji, K.A., Yaga, U.S., Gollamudi, N., Prakash, B., Rajashekar, E. Mucormycosis in a surgical defect masquerading as osteomyelitis: a case report and review of literature. *Pan African Medical Journal*. v.23, n. 1, 2016.
- Leenders, A.C., Daenen, S., Jansen, R.L.; *et al.* Liposomal amphotericin B compared with amphotericin B deoxycholate in the treatment of documented and suspected neutropenia-associated invasive fungal infections. *British Journal of Haematology*. October; v. 103, n. 1, p. 205-12, 1998.
- Miloro, M. Ghali, G.E., Larsen, P.E., Waite, P.D. *Princípios de cirurgia bucomaxilofacial de Peterson*. Editora Santos. 2016.
- Montezzi, N.F., *et al.* *Revista de Saúde*. Janeiro/Junho. v. 11, n. 1, p. 10-14, 2020.
- Neville, B.W., Damm, D.D., Allen, C.M. *Patologia Oral e Maxilofacial - 4ª Ed.* Rio de Janeiro: Elsevier Ltda. 2016.
- Prabhu, S., Alqahtani, M., Al Shehabi, M. A fatal case of rhinocerebral mucormycosis of the jaw after dental extractions and review of literature. *Journal of infection and public health*. v. 11, n. 3, p. 301-303, 2018.
- Rani, S.U., Sivaranjani, Y., Kumar, M.P., Rao, G.V. Rhinocerebral mucormycosis associated with actinomycosis in a diabetic patient: A rare presentation. *Journal of Oraland Maxillofacial Pathology*. February, v. 23, Suppl 1, p. 122-125, 2019.
- Roden, M.M., Zaoutis, T.E., Buchanan, W.L., *et al.* Epidemiology and Outcome of Zygomycosis: A Review of 929 Reported Cases. *Clinical Infectious Disease*. v. 41, n. 5, p. 634-653, 2005.
- Sahota, R., Gambhir, R; Anand, S., Dixit, A. Rhinocerebral Mucormycosis: Report of a Rare Case. *Ethiopian Journal of Health Sciences*. v. 27, n. 1, p. 85-90, 2017.

- Severo, L.C., Oliveira, F.M., Dreher, R., Teixeira, P.Z., Porto, N.S.;Londero, A.T. Zygomycosis: A report of eleven cases and a review of the Brazilian literature. *Revista Iberoamericana de Micologia*. March; v. 19, n. 1, p. 52-56, 2002.
- Shibayama, R., Tiossi, R., Campaner, M., Queiroz, M.E. Dallazen, E. Reabilitação protética de pacientes maxilectomizados – Relato de caso. *Revista Odontológica de Araçatuba*, v.37, n.2, p. 09-16, Maio/Agosto, 2016.
- Skiada, A., Lass-Floerl, C., Klimko, N., Ibrahim, A., Roilides, E., Petrikkos, G. Challenges in the diagnosis and treatment of mucormycosis. *Medical mycology*. v. 56, p. 93-101, 2018.
- Lam, S.C., *et al.* Management of bilateral rhino-orbital cerebral mucormycosis. *Hong Kong Medical Journal*. v. 25, n. 5, p. 408-9, 2019.
- Tryfon, S., *et al.* Rhinocerebral mucormycosis in a patient with latent diabetes mellitus: a case report, *Journal of Oral and Maxillfacial Surgery*. v. 60, p. 328-330, 2002.
- Vilela, V.M., *et al.* Síndrome do seio cavernoso secundária amucormicoserino-orbito- cerebral. *Radiologia Brasileira*. June; v. 46, n. 3, p. 187-189, 2013.
- Xavier, S.D., Korn, G.P., Granato, L. Mucormicose rinocerebral: apresentação de caso com sobrevida e revisão de literatura. *Revista Brasileira de Otorrinolaringologia*. v. 70, n. 5, 710-714, 2004.
- Yohai, R.A.;*et al.* Survival factors in rhino-orbital-cerebral mucormycosis. *Surv Ophthalmol*. v.39, p. 3-22, 1994.

\*\*\*\*\*