

RELATO DE CASO: ACTINOMICOSE DE SEIO ESFENOIDAL SEM FATOR DE RISCO PRÉVIO

CASE REPORT: ACTINOMYCOSIS OF THE SPHENOID SINUS WITHOUT PRIOR RISK FACTOR

RAYSSA TUANA LOURENÇO NASCIMENTO^{1*}, LUCIANA BESSA PESSOA¹, JULIANA LUIZE LADEIRA ESTEFANI¹, FERNANDA GOMES RESENDE¹, BRUNO PESTANA GOMES²

1. Especializanda de Otorrinolaringologia do Instituto de Otorrinolaringologia de Minas Gerais; 2. Otorrinolaringologista do Instituto de Otorrinolaringologia de Minas Gerais, Preceptor da especialização em otorrinolaringologia e diretor clínico do Instituto de Otorrinolaringologia de Minas Gerais.

* Avenida Afonso Pena, 2928, Funcionários, Belo Horizonte, Minas Gerais, Brasil/MG – CEP: 30130-007 rayssa.lourenco@hotmail.com

Recebido em 11/08/2021. Aceito para publicação em 15/09/2021

RESUMO

A actinomicose é uma infecção bacteriana anaeróbica gram-positiva muito rara. O organismo implicado mais comumente nessa infecção é *Actinomyces israelii*. A actinomicose dos seios paranasais é uma entidade extremamente rara, com relatos de casos isolados e pequenas séries de casos publicados na literatura. Os achados tomográficos sugestivos de actinomicose paranasal incluem opacificação, lesão unilateral, espessamento da mucosa, espessamento das paredes ósseas, áreas focais de destruição óssea (principalmente da parede medial) e calcificações. A terapia antibiótica de longa duração associada à cirurgia endoscópica é considerada o padrão-ouro para o tratamento da doença. Nosso caso é um caso raro de inoculação de *Actinomyces* em uma paciente sem histórico de abordagem cirúrgica nasal ou sinusal prévia. Portanto, é importante considerar etiologias adicionais para a actinomicose nesse paciente.

PALAVRAS-CHAVE: Actinomicose, seio paranasal, tratamento de actinomicose.

ABSTRACT

Actinomycosis is a very rare gram-positive anaerobic bacterial infection. The organism most implicated in this infection is *Actinomyces israelii*. Actinomycosis of the paranasal sinuses is an extremely rare entity, with case reports included and small case series published in the literature. CT findings suggestive of paranasal actinomycosis include opacification, unilateral lesion, mucosal thickening, thickening of the bone walls, focal areas of bone destruction (mainly of the medial wall), and calcifications. A long-term antibiotic therapy to the gold standard endoscopic for the treatment of the disease. Our case is a rare case of *Actinomyces* inoculation in a patient with no previous nasal or sinus surgical approach. Therefore, it is important to consider additional etiologies for an actinomycosis in this patient.

KEYWORDS: Actinomycosis, paranasal sinus, actinomycosis treatment

1. INTRODUÇÃO

A actinomicose é uma infecção bacteriana anaeróbica gram-positiva muito rara. O organismo

implicado mais comumente nessa infecção é *Actinomyces israelii*, um bacilo gram-positivo e comensal anaeróbico do trato aerodigestivo^{1,2,3}. Outros organismos menos comumente encontrados são *Actinomyces meyeri* e *A. viscosus*. A actinomicose ocorre mais comumente na região cervicofacial, seguida pelas regiões torácica, abdominal e genital^{4,5,6}. Os locais cervicofaciais mais frequentemente afetados são as glândulas salivares e a mandíbula⁷. Embora não se tenha estudos epidemiológicos precisos, estima-se que a actinomicose seja reportada em menos de 100 casos por ano no mundo inteiro⁸.

A actinomicose dos seios paranasais é uma entidade extremamente rara, com relatos de casos isolados e pequenas séries de casos publicados na literatura^{7,9}. Entre todos os seios, o seio maxilar é o mais acometido, representando mais de 50% dos casos desta afecção em seios paranasais⁹. A patogênese envolve a inoculação e multiplicação da bactéria nos tecidos por quebra da integridade na mucosa ou na presença de tecidos desvitalizados, seja por trauma, cirurgia dentária ou outros procedimentos cirúrgicos^{6,7,9}. O diagnóstico de actinomicose é frequentemente difícil, pois imita várias doenças infecciosas, não infecciosas e até neoplasias malignas, além do fato de ser uma doença extremamente rara⁷.

Esta doença causa uma infecção crônica necrosante em humanos e animais sendo que as vezes, envolve o osso, resultando em osteomielite^{1,7}. A seguir, é apresentado um relato de caso de um desses casos raros e interessantes de actinomicose nasossinusal.

2. CASO CLÍNICO

Paciente do sexo feminino, 74 anos, com queixa de gotejamento pós-nasal persistente, obstrução nasal e hiposmia. Evolução dos sintomas há mais de 1 ano, tendo referenciado prescrições médicas prévias de antibióticos sem resolução do caso. Sem história de implante dentário, cirurgias nasais prévias ou trauma facial. Paciente hipertensa controlada, sem outras queixas. Na primeira avaliação ambulatorial, foi solicitado, inicialmente, o exame de videoendoscopia

nasossinusal com ótica flexível que evidenciou um desvio do septo obstructivo para direita, área II e III de Cottle, grau II a III e secreção de aspecto mucopurulenta drenando do recesso esfenoidal esquerdo em direção a rinofaringe. Foi proposto um curso de antibioticoterapia, por 14 dias, com amoxicilina-ácido clavulânico e reavaliação após término do tratamento com nova videoendoscopia e posterior tomografia de face. No retorno, em 2 semanas, a paciente manteve as queixas iniciais e na videoendoscopia nasossinusal manteve a secreção no recesso esfenoidal esquerdo. Na consulta de retorno, a paciente trouxe uma tomografia da face sem contraste (TC), realizada há mais de 8 meses que evidenciou: lesão única, unilateral, em seio esfenoidal esquerdo, com sinais de sinusopatia inflamatória crônica associada com imagens de hiperatenuações (Figuras 1 e 2).



Figura 1. Cortes axiais mostrando sinusopatia inflamatória crônica no seio esfenóide esquerdo e massas de densidade aumentada.



Figura 2. Cortes coronais mostrando a mesma alteração vista nos cortes axiais.

Após a avaliação tomográfica, foi pensado no diagnóstico de sinusite crônica de natureza fúngica devido a presença de áreas com densidade aumentada nos seios paranasais estar bem correlacionada com a sinusite fúngica¹⁰. Dessa forma, foi proposto uma abordagem cirúrgica da lesão e solicitado um exame de imagem mais recente para a programação operatória. Foi optado pela ressonância nuclear magnética (RM) dos seios da face, antes do procedimento. Devido a relação íntima do seio esfenoidal com importantes estruturas intracranianas e como a tomografia, apesar de mostrar o limite ósseo preservado, tinha sido feita há quase 1 ano, a RM com contraste, junto com a TC, complementa a avaliação dos limites de atuação da doença fúngica no seio esfenoidal¹¹.

O resultado da RM de face evidenciou sinusopatia esfenoidal esquerda com sinais de agudização, sem sinais de invasão de tecidos adjacentes (Figura 3).

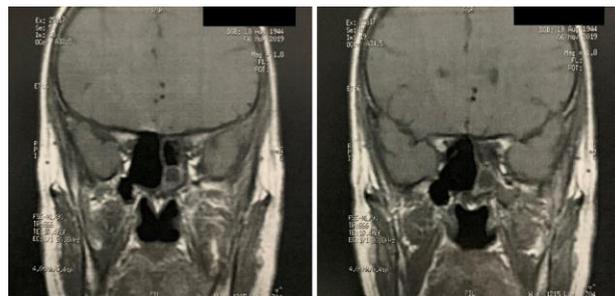


Figura 3. Cortes coronais mostrando sinusopatia inflamatória no seio esfenóide a esquerda com sinais de agudização.

Foi indicada para a paciente uma abordagem cirúrgica do seio esfenoidal, através da sinusectomia esfenoidal por videoendoscopia nasossinusal, com acesso direto do óstio esfenoidal pela fossa nasal esquerda.

Realizada sinusectomia esfenoidal com remoção de secreção e material de aspecto visual endoscópico sugestivo de tecido fúngico. Após remoção completa e lavagem da cavidade o material foi encaminhado para anatomopatológico.

Após 2 semanas, no retorno, o resultado do anatomopatológico evidenciou: crescimento de *Actinomyces sp.*, sem demais patógenos na amostra. Com a definição anatomopatológica da doença foi proposto o tratamento para Actinomycose.

Paciente tratada com Amoxicilina por 8 semanas, mantendo-se assintomática. Realizada TC de controle após 3 meses do ato cirúrgico que mostrou: ausência de material hipodenso em seio esfenoidal esquerdo (Figuras 4 e 5).



Figura 4. Cortes axiais mostrando ausência de material hipodenso em seio esfenoidal esquerdo.



Figura 5. Cortes coronais mostrando ausência de material hipodenso em seio esfenoidal esquerdo.

3. DISCUSSÃO

São conhecidas várias espécies de *Actinomyces* que infectam seres humanos e incluem anaeróbios facultativos como *A. israelii*, *A. odontolyticus*, *A.*

meyeri, *A. naeslundii*, *A. viscosus* e *A. gerencseriae*¹². *Actinomyces* é normalmente encontrado no trato aerodigestivo como um comensal. A infecção ocorre por quebra na integridade da mucosa, devido a trauma ou procedimentos cirúrgicos, sendo os procedimentos dentários como extração ou implantes, a maior causa de infecção por este microorganismo^{3,9,13}. Historicamente, a actinomicose foi confundida com infecção fúngica, daí o nome impróprio.

Verificou-se que a incidência de actinomicose cervicofacial é de 25% de todas as infecções odontogênicas¹². A actinomicose dos seios paranasais é uma sub-entidade da actinomicose cervicofacial, sendo portanto muito rara, na qual o seio maxilar é o mais acometido, no entanto, pode haver envolvimento do etmoide e do seio esfenoidal^{3,9,14}. O acometimento paranasal geralmente afeta mulheres na quinta década de vida, ao contrário da demografia da actinomicose cervicofacial, que é quatro vezes mais comum em homens na segunda a quinta décadas de vida⁵.

A actinomicose dos seios paranasais permanece como uma entidade rara e só foi demonstrada por um pequeno número de relatos de casos. Ocasionalmente, pode complicar com extensão intracraniana, que apresenta clinicamente com dor de cabeça, alterações visuais e paralisia de nervo craniano^{10,12}. É geralmente causada por *A. israeli*, bactéria gram-positiva anaeróbica. Essa doença ocorre mais comumente em pacientes imunocomprometidos, como pacientes com câncer, HIV, diabetes, desnutrição e uso de drogas imunossupressoras².

Os achados tomográficos sugestivos de actinomicose paranasal incluem opacificação, lesão unilateral, espessamento da mucosa, espessamento das paredes ósseas, áreas focais de destruição óssea (principalmente da parede medial) e calcificações³.

A terapia antibiótica de longa duração associada à cirurgia endoscópica é considerada o padrão-ouro para o tratamento da doença¹⁵. A penicilina é a droga de escolha para todas as formas clínicas de actinomicose¹⁶. A revisão da literatura mostra que formas leves de infecções cervicofaciais podem ser tratadas com um curso de 2 meses de penicilina oral V ou uma das tetraciclina como doxiciclina (100 mg por via oral duas vezes ao dia) sem necessidade de intervenção cirúrgica¹⁷. Para outras formas mais complicadas de actinomicose, a penicilina parenteral G (10 a 20 milhões de unidades por dia dividida em quatro doses) deve ser administrada por 4 a 6 semanas, seguida pela penicilina oral V, 2 a 4 g/dia dividida a cada 6 horas, por 6 a 12 meses¹⁸. Alguns estudos mostram que a associação com metronidazol também mostrou bons resultados¹⁹. Para pacientes alérgicos à penicilina, eritromicina, clindamicina, tetraciclina ou cefalosporinas podem ser usadas como alternativas^{1,18,20}. É necessária uma longa duração do tratamento, pois a penetração de antibióticos beta-lactâmicos no osso é baixa, e conforme relatado anteriormente, a actinomicose é uma infecção necrotizante. Portanto, é prudente ofertar uma longa

duração de tratamento com antibióticos para evitar recaídas^{2,18}. A gravidade da doença e seu local de acometimento que definem a duração exata do tratamento.

A cirurgia é necessária na maioria dos casos para remover o tecido necrótico, o que facilita uma recuperação mais rápida com o tratamento medicamentoso. Assim, a maioria dos casos requer gerenciamento medicamentoso e cirúrgico combinado. A cirurgia, na maioria das vezes, não é curativa se realizada isoladamente^{2,14}.

4. CONCLUSÃO

A apresentação enigmática da actinomicose em um caso abordado inicialmente com uma sinusite crônica de aspecto fúngico torna este um caso interessante em que a rota da infecção ainda é desconhecida. Nosso caso é um caso raro de inoculação de *Actinomyces* em uma paciente sem histórico de abordagem cirúrgica nasal ou sinusal prévia.

Portanto, é importante considerar etiologias adicionais para a actinomicose nesse paciente. Por exemplo, foi demonstrado que a hipóxia sinusal pode bloquear o óstio sinusal, causando um ambiente aeróbico para o *Actinomyces*. Esse caso foi incomum devido ao patógeno isolado na ausência de um fator de risco prévio.

Este caso está sendo relatado, a fim de acrescentar à literatura disponível mais informações acerca deste assunto.

5. AGRADECIMENTOS OU FINANCIAMENTO

Agradecemos a todos os profissionais que trabalham no Instituto de Otorrino de MG, que se empenham cada dia mais para manter a boa qualidade no atendimento.

REFERÊNCIAS

- [1] Gupta V, Dwivedi G, Sengupta P, Tripathi S, Goyal S, Kumar M, *et al.* A rare case of sinonasal actinomycosis – enigmatic presentation. *Int J Otorhinolaryngol Head Neck Surg.* 2018; 4:863-7.
- [2] Valour F, Sénéchal A, Dupieux C, Karsenty J, Lustig S, Breton P, *et al.* Actinomycosis: etiology, clinical features, diagnosis, treatment, and management. *Infect Drug Resist.* 2014; 7:183-7.
- [3] Cohn JE, Lentner M, Li H, Nagorsky M. Unilateral maxillary sinus actinomycosis with a closed orontral fistula. *Case Rep Otolaryngol.* 2017; 7568390, doi: 10.1155/2017/7568390. Epub ahead of print. PMID: 28352486
- [4] Sharkawy AA. Cervicofacial actinomycosis and mandibular osteomyelitis. *Infect Dis Clin N Am.* 2007; 21:543-56
- [5] Vorasubin N, Wu AW, Day C, Suh JD. Invasive sinonasal actinomycosis. *Laryngoscope.* 2013; 123:334-8.
- [6] Wadhera R, Gulati SP, Garg A, Ghai A, Kumar S. Frontal sinus actinomycosis presenting as osteomyelitis of frontal bone. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2008;

- 138:544-5.
- [7] Vinay BH, Mohan A, Haritha P, Lakshmi KR. A rare coexistence of aspergillosis with actinomycosis. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2017; 21:277-81.
- [8] Hwang CS, Lee H, Hong MP, Kim JH, Kim KS. Brain abscess caused by chronic invasive actinomycosis in the nasopharynx: A case report and literature review. *Medicine (Baltimore).* 2018;97,1-4.
- [9] Roth M, Montone KT. Actinomycosis of the paranasal sinuses: a case report and review. *Otorhinolaryngol Head Neck Surg.* 1996; 114:818-21
- [10] Zinreich SJ, Kenned DW, Malat J, Curtin HD, Epstein JI, Huff LC *et al.* Fungal sinusitis: diagnosis with CT and MR imaging. *Radiology* 1988; 169:439-44.
- [11] Neto SC, Junior JFM, Martins RHG, Costa SS. *Tratado de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cervicofacial*, 2 .ed, vol. III: Cirurgia craniomaxilofacial e cirurgia plástica da face. SP:Roca,2011-121-36.
- [12] Schaal KP, Lee HJ. Actinomycete infections in humans- a review. *Gene.* 1992; 115:201-11
- [13] Woo HJ, Chang Hoon B, Song SY, Choi YS, Kim YD. Actinomycosis of the paranasal sinus. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2008; 139:460-2.
- [14] Fadda GL, Gisolo M, Crosetti E, Fulcheri A, Succo G. Intracranial complication of rhinosinusitis from actinomycosis of the paranasal sinuses: a rare case of abducens nerve palsy. *Case Rep Otolaryngol.* 2014; ID:601671. doi:10.1155/2014/601671. PMID: 25221679.
- [15] Damante JH, Sant'Ana E, Soares CT, Moreira CR. Chronic sinusitis unresponsive to medical therapy: a case of maxillary sinus actinomycosis focusing on computed tomography findings. *Dentomaxillofac Radiol.* 2006; 35:213-6.
- [16] Smith AJ, Hall V, Thakker B, Gemmell CG. Antimicrobial susceptibility testing of *Actinomyces* species with 12 antimicrobial agents. *J Antimicrob Chemother.* 2005;56(2):407-9.
- [17] Smego Jr RA, Foglia G. Actinomycosis. *Clin Infect Dis.* 1998; 26:1255-61.
- [18] Martin MV. The use of oral amoxycillin for the treatment of actinomycosis. A clinical and in vitro study. *British Dental J.* 1984; 156:252.
- [19] Moghimi M, Salentijn E, Debets-Ossenkop Y, Karagozoglu KH, Forouzanfar T. Treatment of cervicofacial actinomycosis: a report of 19 cases and review of literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2013; 18:627-32.
- [20] Martin MV. Antibiotic treatment of cervicofacial actinomycosis for patients allergic to penicillin: a clinical and in vitro study. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1985; 23:428-34.