

Secuelas de mucormicosis rinocerebral reparadas por medio de un colgajo indio prelaminado. Reporte de caso

Aftermath of rhinocerebral mucormycosis repaired by means of an indian flap prelaminated.

Case report

Daniel Simón Servín-Uribe¹, Martín Adrián Bolívar-Rodríguez^{2*}, José Cándido Ortiz-Bojórquez², Marcel Antonio Cázares-Aguilar², Rodolfo Fierro-López², Diana Tello-García².

1. Servicio de Cirugía Reconstructiva del Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud en el Hospital Civil de Culiacán de la Universidad Autónoma de Sinaloa, Culiacán, Sinaloa, México.
2. Servicio de Cirugía General del Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud en el Hospital Civil de Culiacán de la Universidad Autónoma de Sinaloa, Culiacán, Sinaloa, México.

DOI <http://dx.doi.org/10.28960/revmeduas.2007-8013.v9.n4.005>

Recibido 15 Enero 2019, aceptado 19 Mayo 2019

RESUMEN

La mucormicosis es una enfermedad de baja prevalencia, frecuentemente fatal y rápidamente progresiva, causada por hongos de la familia Mucoraceae, más común en pacientes inmunocomprometidos y diabéticos descompensados. La mucormicosis rinocerebral es la forma clínica más común, más agresiva y fatal de la enfermedad, con amplia destrucción de tejidos por necrosis, su tratamiento incluye antimicótico sistémico, desbridamiento quirúrgico agresivo y corrección de la inmunidad deficiente. Al obtener curación de la patología, el tratamiento se orienta a reconstruir las zonas devastadas por medio de colgajos, entre ellos el prelaminado.

Caso Clínico: Paciente femenina de 42 años de edad de profesión enfermera, con antecedentes de Diabetes Mellitus 2, con secuelas funcionales y estéticas secundarias a infección por Mucormicosis rinocerebral, fue intervenida quirúrgicamente mediante un colgajo prelaminado indio, con resultados satisfactorios; función respiratoria nasal, redefinición de contornos de la nariz, restauración estética y funcionalidad de la cavidad ocular preparando el socket para prótesis ocular.

Palabras clave: Mucormicosis rinocerebral, tratamiento, procedimiento quirúrgico reconstructivo.

ABSTRACT

Mucormycosis is an often-fatal disease of low prevalence, rapidly progressive, caused by fungi of the family Mucoraceae more common in immunocompromised and diabetic decompensated patients. Rhinocerebral mucormycosis is the most common, most aggressive and fatal manifestation with extensive destruction of tissue necrosis, treatment includes antifungal, aggressive surgical debridement and correction of poor immunity. When obtaining healing treatment is directed to the reconstruction of areas devastated by flaps do including pre-laminated. **Case report:** Female patient 42 years of nursing profession with a history of Diabetes Mellitus 2 with functional sequelae and secondary aesthetic to infection mucormycosis rhino-cerebral, underwent surgery for reconstructive surgery with an Indian prelaminated flap with satisfactory results, achieving the nasal respiratory function, redefining contours of the nose, aesthetic restoration and functionality of the eye socket preparing for prosthetic eye socket.

Key words: Rhinocerebral mucormycosis, treatment, reconstructive surgical procedures.

INTRODUCCIÓN

La mucormicosis, también conocida como zigomicosis o phycomycosis, es una enfermedad de baja prevalencia, frecuentemente fatal y rápidamente progresiva, causada por hongos de la familia *Mucoraceae*, de la orden *Mucorales* que incluye *Rhizopus*, *Mucor* y especies de *Absidia*¹. Fué descrita por primera vez por Arnold Paltauf pacientes inmunocomprometidos en el 90% de los

casos², teniendo gran afinidad por los pacientes diabéticos descompensados por cetoacidosis, esto en relación al hecho de que *Rhizopus* prolifera en un medio rico en glucosa y con pH ácido³, con una mortalidad en México del 51%⁴ y de 20-40% a nivel mundial¹.

La mucormicosis puede dividirse en rinocerebral, pulmonar, cutánea, cardíaca, gastrointestinal y diseminada. La rinocerebral es la manifestación más común, la más agresiva y fatal. A su vez está se puede dividir en rino-maxilar y rino-orbitocerebral⁵.

***Autor de Correspondencia:** Dr. Martín Adrián Bolívar-Rodríguez, Domicilio: Calle Eustaquio Buena No. 91, Colonia Gabriel Leyva C.P. 80030 Culiacán, Sinaloa, Tel. (667) 7132606 Correo: bolivarmartin64@hotmail.com

Su fisiopatología está relacionada con factores de virulencia de los microorganismos y con factores de inmunidad del huésped en un determinado microambiente^{2,6}.

La forma rinocerebral se adquiere por inhalación de esporas comenzando la infección en mucosa nasal, senos paranasales y tráquea. Una vez dentro de los tejidos celulares, el microorganismo se afianza de la lámina elástica interna de las arterias, posteriormente venas y linfáticos, esta angi-invasión provoca trombosis, infartos isquémicos secundarios y necrosis hemorrágicas³.

Esta necrosis es el lugar donde reside el microorganismo y se disemina por extensión directa a lo largo de los vasos sanguíneos, continúa con daños al cartílago, erosión ósea, existe diseminación a las órbitas y atraviesa las meninges con extensión intracraneana⁷, causando la coloración negra característica y acidificando el medio, provocando un círculo vicioso de acidosis por descontrol metabólico, necrosis e infección⁸.

Histológicamente se observa que la propagación es a través de vías angiolinfáticas y crecen en los espacios perivasculares e intravasculares¹.

Radiológicamente se observa osteolisis, engrosamiento nodular de la mucosa del seno y ausencia del nivel del líquido sinusal. La tomografía computarizada determina la extensión de la lesión y la resonancia magnética determina la invasión cerebrovascular.

La adecuada estrategia de tratamiento inicia con un diagnóstico precoz el cual conlleva el inicio de la terapia antimicótica sistémica, el desbrida-

miento quirúrgico agresivo y la adecuada corrección de la inmunidad deficiente⁹.

La reconstrucción de las zonas devastadas puede ser tratada por medio de colgajos, que implica la transferencia de tejido desde un área donadora hasta un área receptora, manteniendo su conexión vascular con el sitio de origen¹⁰.

Los colgajos prefabricados con su variante prelamado, es una técnica quirúrgica usada para reparación nasal, la cual ha sido usada desde los 90's mediante técnicas de microcirugía con excelentes resultados. La prelamación incluye la implantación de tejidos tan variados como cartílago, hueso, mucosas, nervio, cultivo de queratinocitos o elementos de bioingeniería dentro de un territorio vascular con un pedículo definido previo a una transferencia¹¹. El colgajo prelamado indio posee un eje vascular axial que soporta un bloque tisular de múltiples capas y transporta el revestimiento necesario para la reconstrucción¹².

Como en este y otro tipo de colgajos pediculados, uno de los inconvenientes del colgajo frontal (colgajo indio) prelamado, es la necesidad de realizar un segundo tiempo quirúrgico para dar tiempo a la maduración del tejido previo, entre 2 y 4 semanas¹³.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente femenina de 42 años de edad, con Diabetes Mellitus tipo II, de 4 meses de evolución en tratamiento, de profesión enfermera que presenta cuadro de mucormicosis rinocerebral de difícil diagnóstico, corroborado histopatológicamente. Recibió tratamiento médico a base de anfotericina

B 75 mg al día por vía endovenosa durante 45 días, múltiples desbridaciones quirúrgicas y sesiones de oxígeno hiperbárico, logrando la curación al mes y medio del diagnóstico, quedando como secuelas: pérdida de la anatomía facial periorcular y cavidad orbitaria incluido el globo ocular y una fístula rino-orbitaria.

Para la corrección de la fístula se realizaron múltiples cirugías por el servicio de otorrinolaringología con recidiva de la fístula, refiriéndose a la consulta de cirugía reconstructiva para su valoración (Figura 1), en donde se decide reparación de fístula y defecto facial con un colgajo indio prelaminado paramedial con toma de septum nasal más colocación de socket orbitario, realizándose en dos tiempos, con una diferencia de 2 meses entre cirugías.



Figura 1. Paciente con secuelas de enfermedad. Fístula rino-orbitaria (flecha) y ausencia ocular izquierda.

En el primer tiempo se toma por abordaje transcutáneo, un segmento de 1 cm³ aproximadamente de la zona 2 del septum cartilaginoso de la paciente (Figura 2), el cual se incluye en la región vascular

axial de la arteria supratroclear, dejándose integrar y formar la neovascularización. En el segundo tiempo, previo marcaje de la región a trasplantarse (Figura 3) se realizó la transferencia local del colgajo ya formado, con una rotación interna hacia la cara medial orbitaria, desepiteliizando la zona que quedaría tunelizada y se injertó piel en la parte que quedó expuesta, la cual fue soporte de la prótesis (Figura 4).



Figura 2. Cartílago nasal libre



Figura 3. Marcaje de colgajo indio (flecha)



Figura 4. (A) Rotación de colgajo indio (flecha). (B) injerto de piel en defecto.

Se cita en 15 días a la consulta de seguimiento, encontrándose colgajo con integración al 100% del injerto de espesor total. Un año después acude a revisión observándose en excelentes condiciones (Figura 5).



Figura 5. Paciente 1 año después

DISCUSIÓN

La mucormicosis rinocerebral se inicia con infiltración dentro de la mucosa de los senos paranasales, cursando como una sinusitis bacteriana el cual se deteriora rápidamente con dolor ocular, oftalmoplejía, fiebre, edema, ptosis parálitica y la presentación de escaras negras nasales y palatinas (19-40%). Las hifas tienen predilección vascular creando una reacción de fibrina desarrollada por el *Mucor Thrombi*, la cual desencadena microtrombosis formando las típicas escaras negras en la cara. Puede existir extensión directa al cerebro por extensión directa o crecimiento micelial por los nervios óptico y olfatorio¹.

Waizel-Haiat et al³ reportan que la órbita se involucra entre un 66-100% de los casos, y el grado de oftalmoplejía generalmente se correlaciona con la severidad de la inflamación orbitaria.

El Gold standard es el tratamiento con la anfotericina B sistémica y desbridamiento quirúrgico, Karadeniz et al¹⁴ reportan que antes del uso de la anfotericina B existía una tasa de supervivencia solo del 6%, siendo que posterior a su introducción se observa un importante ascenso de la supervivencia hasta un 60% con la anfotericina aunada a un desbridamiento extenso de tejido necrótico blando y óseo. Actualmente se considera una mortalidad del 20-40% en pacientes diabéticos^{1,7}.

Una vez erradicada la enfermedad hay que pensar en la reconstrucción de las zonas afectadas. Esta reconstrucción se puede realizar mediante colgajos, como en el caso presentado a quien se

le realizó un colgajo frontal paramedial prelaminao pediculado.

Panse et al¹⁵ refieren que el colgajo frontal prelaminao se diseña cuando, se hace necesaria la reconstrucción del soporte nasal e incluso la vía aérea, debido a la coloración y textura, la piel de la frente es conocida como el mejor sitio donante. El manejo dado al colgajo indio en nuestra paciente fue el mismo que Bumber et al¹⁶ describen que finalizado el levantamiento del colgajo prelaminao, este se rota 180° en su base y se cubre el defecto nasal con la parte distal del colgajo. El colgajo puede ser adelgazado a nivel de los tres cuartos distales, resecando músculo frontal y tejido graso subcutáneo.

En general, los defectos nasales mayores de 2.5 cm de longitud horizontal o transversal pueden ser tratados con colgajos nasales. Una indicación para el uso del colgajo frontal paramedial es el defecto nasal con exposición de hueso y cartílago^{17,18}.

CONCLUSIONES

La mucormicosis rinocerebral es una enfermedad que se presenta muy raramente, pero es fatal. Su adecuado tratamiento médico y quirúrgico puede contener los daños, más sin embargo deja secuelas estéticas y funcionales que requieren reconstrucción como es el caso reportado, lográndose la reparación casi en su totalidad del defecto mediante un colgajo indio prelaminao paramedial,

cuya técnica requiere correcta selección del paciente, adecuada planificación y la habilidad de un cirujano experto para la obtención de resultados satisfactorios.

REFERENCIAS

1. Acosta-Behrends C, Lucio-Leonel E, Uribe-Campos A, Gómez-Mata B. Mucormicosis rinocerebral de origen dental: reporte de un caso clínico y revisión de la literatura. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2014;36(2):68-72.
2. Prado-Calleros HM, Fajardo-Dolci G, Plowes-Hernández O, Jiménez-Gutiérrez C. Mucormicosis rinoorbitaria. Estudio de cohorte de su tratamiento de acuerdo a la extensión de la enfermedad y reversión de su fisiopatología. *Gac Med Mex.* 2016;152(6):770-82.
3. Waizel-Haiat S, Cohn-Zurita F, Vargas-Aguayo AM, Ramírez-Aceves R, Vivar-Acevedo E. Mucormicosis rinocerebral invasora crónica. *Cir Cir* 2003;71(2):145-9
4. Corzo-León DE, Chora-Hernández LD, Rodríguez-Zulueta AP, Walsh TJ. Diabetes mellitus as the major risk factor for mucormycosis in Mexico: Epidemiology, diagnosis, and outcomes of reported cases. *Med Mycol.* 2018;56(1):29-43.
5. Kolekar JS. Rhinocerebral Mucormycosis: A Retrospective Study. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2015;67(1):93-96.
6. González-Mora J, Camacaro-González O, Rangel-Becerra W, Torrealba-Jiménez S, Orellana ME. Infección Oportunista Rinoorbitaria en Paciente Inmunosuprimido. *Arch Salud Sin* 2016;10(1):191-194
7. Vaezi A, Moazeni M, Rahimi MT, de Hoog S, Badali H. Mucormycosis in Iran: a systematic review. *Mycoses* 2016;59(7):402-415.

8. Grant P, Skilbeck Ch. Rhinocerebral mucormycosis: a devastating rhinological condition. *Practical Diabetes* 2014;31(1):37-39.
9. Rajkumar GC, Handa JK, Ashwin DP, Vennila NS. Rhinocerebral mucormycosis: Race against time for surgeons. *Int J Health Allied Sci.* 2016;5(1):28-32
10. Sepúlveda S, Andrades P. *Cirugía Plástica Esencial*. 1ª ed. Chile: Universidad de Chile; c2005. Capítulo 5, Colgajos; 65-86.
11. Mathy JA, Pribaz JJ. Prefabrication and prelamination applications in current aesthetic facial reconstruction. *Clin Plast Surg* 2009;36(3):493-505.
12. Landín-Jarillo L. *Recuperación funcional del trasplante facial en ratas*. [tesis doctoral]. Madrid, España: Universidad Autónoma de Madrid;2011.
13. González-García R, Navas-Gías L, Rodríguez-Campos FJ, Sastre-Pérez J. Colgajo frontal. Método sencillo en la reconstrucción de defectos cutáneos nasales extensos. *Rev Esp Cir Oral y Maxilofac* 2009;31(1):32-38.
14. Karadeniz Uğurlu Ş, Selim S, Kopar A, Songu M. Rhino-orbital Mucormycosis: Clinical Findings and Treatment Outcomes of Four Cases. *Turk J Ophthalmol.* 2015;45(4):169-174.
15. Panse N, Sahasrabudhe P, Dhondge R. Complex nasal and periorbital reconstruction using locoregional flaps: a case report. *World J Plast Surg.* 2012;1(2):116-120.
16. Bumber Z, Stanec Z, Prgomet D, Janjanin S. Prelaminated forearm flap for nose reconstruction. *Eur J Plast Surg* 2005;27(7):344-346.
17. Chioaru B, Dragu E, Lascar I. Nose defects reconstruction with forehead flap - case report. *Maedica (Buchar)* 2014;9(1):76-78.
18. Sinha M, Scott JR, Watson SB. Prelaminated free radial forearm flap for a total nasal reconstruction. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2008;61(8):953-957.