



**UNIVERSIDADE ESTADUAL DA PARAÍBA
CAMPUS VIII – PROFESSORA MARIA DA PENHA – ARARUNA
CENTRO DE CIÊNCIAS, TECNOLOGIA E SAÚDE
CURSO DE ODONTOLOGIA**

**MICETOMAS NO COMPLEXO ESTOMATOGNÁTICO:
*UMA REVISÃO INTEGRATIVA DE LITERATURA***

Acadêmico: Cícero Kennedy de Freitas
Orientador: Manuel Antonio Gordón-Nuñez

**Araruna / PB
2017**

**CICERO KENNEDY DE FREITAS
MANUEL ANTONIO GORDÓN-NÚÑEZ**

**MICETOMAS NO COMPLEXO ESTOMATOGNÁTICO:
UMA REVISÃO INTEGRATIVA DE LITERATURA**

Trabalho de conclusão de curso apresentado à
Coordenação do Curso de Odontologia da
UEPB – Campus VIII como requisito parcial
para a obtenção do título de Cirurgião-Dentista.

Araruna / PB

2017

É expressamente proibido a comercialização deste documento, tanto na forma impressa como eletrônica. Sua reprodução total ou parcial é permitida exclusivamente para fins acadêmicos e científicos, desde que na reprodução figure a identificação do autor, título, instituição e ano do trabalho.

F862m Freitas, Cicero Kennedy de.

Micetomas no complexo estomatognático: uma revisão integrativa de literatura [manuscrito] : / Cicero Kennedy de Freitas. - 2017.

29 p.

Digitado.

Trabalho de Conclusão de Curso (Graduação em Odontologia) - Universidade Estadual da Paraíba, Centro de Ciências, Tecnologia e Saúde, 2017.

"Orientação : Prof. Dr. Manuel Antonio Gordón-Núñez ,
Coordenação do Curso de Odontologia - CCTS."

1. Micetoma. 2. Eumicetoma. 3. Actinomicetoma. 4.
Complexo estomatognático.

21. ed. CDD 617.6

CICERO KENNEDY DE FREITAS

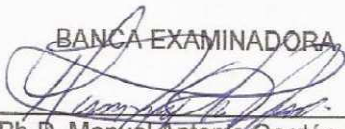
MICETOMAS NO COMPLEXO ESTOMATOGNÁTICO: UMA REVISÃO
INTGRATIVA DE LITERATURA


Artigo apresentado à coordenação do Curso de Odontologia da UEPB – Campus VIII como requisito parcial para a obtenção do título de Cirurgiã dentista.

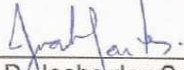
Área de concentração: Processos patológicos.

Aprovado em: 13/12/17 08:00 h.

BANCA EXAMINADORA


Prof. Dr., M.D, Ph.D. Manuel Antonio Gordón-Núñez (Orientador)
Universidade Estadual da Paraíba (UEPB)


Prof.^a. Me. Livia Natália Sales Brito
Universidade Estadual da Paraíba (UEPB)


Prof. M.D., Ph.D. Joabe dos Santos Pereira
Universidade Estadual da Paraíba (UEPB)

AGRADECIMENTOS

À **Deus**, por me permitir chegar até aqui.

A minha mãe, **Odilia Eufлаuzina** (*in memória*), por me dar todo o apoio que necessitei, para me manter firme nessa trajetória, que como ela sempre dizia “*é apenas o começo, voe alto minha águia pequena*”. Ao meu Pai **José Izidro de Freitas** por ser ancora na minha vida.

As **minhas irmãs e meu irmão** por me apoiarem **incondicionalmente** e se alegrarem com minha conquista, em especial a minha irmã **Verônica Freitas** pelo suporte e pelas vezes que foi sofredamente me deixar de moto pra seguir viagem pra Araruna.

Aos meus amigos **Silvana Marinho, Dr. Marinho, Erleide Lima, Rosenildo Lopes, Otavio Bernardo, Socorro Brasileiro e Tatiana Moreira**, pelo aporte, suporte e apoio e em todos os momentos.

A todos os **meus amigos de Santo André**, que torcem e vibram comigo a cada conquista.

Ao Meu Orientador, **Manuel Antonio Gordón-Núñez**, peça chave para a elaboração desse projeto, e pelo apoio dado de todas as formas aqui no campus, pela paciência, uma espécie de Pai fora de casa de quem cada conselho vale mais que a maior pedra de turmalina. Agradeço pela paciência e por abraçar essa causa desde o convite inicial. Obrigado pela parceria e capricho nas orientações e por todas as contribuições.

À minha amiga da graduação, **Kamila Belmiro**, pelas conversas, risadas, comilanças, ideias trocadas e as ajudas em horas de aperto.

Aos meus amigos, **Nathalia Rodrigues, Elizabeth Dantas, Maria de Fatima, Vanessa Lacerda, Youseph Fernandes**, pelos inúmeros momentos vividos e pela paciência com minhas chatices e brincadeiras. Vocês foram a minha família fora de casa!

A minha amiga, **Kaiza Santos**, pela valorosa amizade e pela parceria acadêmica firmada.

Ao Amigo **Johnatan Meireles**, pelo companheirismo, pela paciência e amizade.

A todos meus amigos da turma V, obrigado pelo coleguismo e pela amizade.

LISTA DE TABELAS E FIGURAS

Figura / Tabela	Título	Página
Figura 01	Fluxograma de busca de artigos sobre micetomas no complexo estomatognático. Araruna – PB, 2017.....	25
Figura 02	Distribuição dos micetomas no complexo estomatognático em relação à faixa etária dos pacientes. Araruna - PB, 2017.....	26
Figura 03	Distribuição dos micetomas no complexo estomatognático em relação à localização anatômica. Araruna - PB, 2017.....	27
Tabela 01	Relatos de micetomas no complexo estomatognático. Araruna – PB, 2017.....	28

SUMÁRIO

	Página
1 INTRODUÇÃO	10
2 METODOLOGIA	11
2.1 PERGUNTA DE PESQUISA	11
2.2 ESTRATÉGIA DE BUSCA	11
2.3 TRIAGEM E SELEÇÃO DOS ESTUDOS	12
2.4 EXTRAÇÃO DOS DADOS	12
2.5 ANÁLISE DE DADOS	12
3 RESULTADOS	13
4 DISCUSSÃO	15
5 CONCLUSÕES	20
7 ABSTRACT	21
REFERÊNCIAS	22

MICETOMAS NO COMPLEXO ESTOMATOGNÁTICO: *UMA REVISÃO INTEGRATIVA DE LITERATURA.*

Mycetomas in the stomatognathic complex: an integrative review

Cícero Kenedy Freitas, Manuel Antonio Gordón-Núñez

RESUMO

Os micetomas constituem processos inflamatórios granulomatosos crônicos da pele e tecidos subcutâneos, podendo comprometer ossos, associados a agentes eumicóticos (fungos) ou actinomicóticos de origem exógena que raramente podem comprometer os tecidos do complexo estomatognático. O objetivo deste trabalho foi apresentar, através de uma revisão integrativa da literatura, o perfil epidemiológico de pacientes com micetomas no complexo estomatognático, agentes etiológicos, localizações topográficas mais frequentes, características clínicas e manejo das lesões. Foi realizada uma pesquisa na base de dado MEDLINE, utilizando os seguintes critérios: artigos publicados na íntegra, no período de 2000 a 2017, em inglês, português ou espanhol, case report, classical articles e reviews sobre o tema, utilizando os seguintes descritores: Mycetoma, Actinomycetoma, Eumicetoma, Oral cavity, maxilares, mandíbula, maxila, e seus mesh terms. Resultados: Foram incluídos um total de 15 artigos sobre micetomas comprometendo tecidos do complexo estomatognático, dos quais 7 artigos foram de relato de casos, 4 de pesquisa e 4 de revisão de literatura, perfazendo um total de 212 pacientes com micetomas no complexo estomatognático, com predominância do seio maxilar. Pacientes entre a segunda e terceira décadas de vida foram mais acometidos. Conclui-se que, mesmo sendo de ocorrência rara na região de cabeça e pescoço os micetomas precisam ser incluídos no diagnóstico diferencial quando houver suspeita de ocorrência de tumores no complexo estomatognático. O perfil de ocorrência de micetomas no complexo estomatognático caracteriza-se por predominar no sexo feminino, na terceira década de vida e principalmente no seio maxilar, sugerindo-se a possível associação desses casos a complicações de tratamentos endodônticos, destacando a importância de profissionais da odontologia na ocorrência, diagnóstico e manejo de lesões de micetomas no complexo estomatognático.

Palavras-chaves: Micetoma. Eumicetoma. Actinomicetoma. Complexo estomatognático.

Endereço para correspondência:

Manuel Antonio Gordón-Núñez

Universidade Estadual da Paraíba (UEPB)

Rua: Coronel Pedro Targino, Centro

Araruna, PB – Brasil - E-mail: gordonnunez162531@gmail.com

Phone: (5584) 999077970

Phone/Fax: (5583) 33731040

1 INTRODUÇÃO

Os micetomas constituem processos inflamatórios granulomatosos crônicos da pele e tecidos subcutâneos, podendo comprometer ossos, associados a agentes eumicóticos (fungos) ou a bactérias aeróbicas (ARENAS et al, 2017). Classificam-se em Actinomicetomas, causado por bactérias aeróbicas filamentosas, Gram positivas e bactérias ramificadas pertencentes á ordem *Actinomycetales*; e Eumicetomas causados por vários gêneros de fungos verdadeiros (CZECHOWSKI, NORK, LESTRIGANT, 2001).

Relata-se que a proporção mundial de micetomas é de 60% para os actinomicetomas e 40% para os eumicetomas, sendo doenças de caráter endêmico em regiões tropicais, subtropicais e temperadas, principalmente na África, com destaque para o Sudão, Mauritânia, Senegal, Índia, Iêmen e Paquistão. Na América, os países de maior frequência são o México e Venezuela, no entanto alguns relatos têm sido publicados no Brasil (WELSH et al, 2012; NAI, STUANI, STUANI, 2011; MARTINS, RIBEIRO ROSA, 2003).

Os agentes etiológicos dos micetomas são importantes saprófitos do solo, o microrganismo é inoculado na pele exposta dos pés ou por lesão em áreas como pernas costas e extremidades dos membros superiores, estudiosos ainda dão como incerta a forma como estes microrganismos são inoculados na boca causando desta forma o micetoma oral, no entanto, muitos casos têm sido relatados em seio maxilar como complicações de tratamentos endodônticos (COSTA et al, 2006; MATJAZ, JERNEJ, MIRELA, 2004; CZECHOWSKI et al, 2001; KHONGKHUNTHIAN, REICHART 2001).

Devido ao pouco frequente relato de casos com acometimento do complexo estomatognático pelos micetomas, este trabalho apresenta o perfil clínico demográfico de micetomas e uma revisão dos casos no complexo estomatognático relatados na literatura.

O objetivo deste trabalho é apresentar, através de uma revisão integrativa da literatura, o perfil epidemiológico de pacientes com micetomas no complexo estomatognático, agentes etiológicos, localizações topográficas mais frequentes, características clínicas e manejo das lesões.

2 METODOLOGIA

2.1 Pergunta de pesquisa

Esta revisão foi conduzida inicialmente baseada no desenvolvimento da seguinte pergunta de pesquisa: *Qual o perfil de pacientes e as localizações topográficas mais prevalentes de micetomas que comprometem o complexo estomatognático?*

2.2 Estratégia de busca

Uma base foi utilizada para identificar documentos que satisfizessem o objetivo do estudo: a National Library of Medicine, Washington, DC (MEDLINE - PubMed). A base de dados foi pesquisada para estudos realizados até novembro de 2017 (Figura 1).

A estratégia de busca foi personalizada de acordo com a base de dados pesquisada. Os seguintes termos baseados na pergunta de pesquisa e na estratégia **PICO** foram utilizados na busca dos artigos na MEDLINE - PubMed.

Population: Jaw OR Jaws OR Mandible OR Mandibles OR Mycetoma OR Eumycetoma OR Maxilla OR Oral OR Oral OR Maxillas OR Maxillary Bone OR Bone Maxillary OR Bones Maxillary OR Maxillary Bones OR Maxillae.

("mouth"[MeSH Terms] OR "mouth"[All Fields] OR "oral"[All Fields]) AND ("mycetoma"[MeSH Terms] OR "mycetoma"[All Fields])

Intervention: Mycetoma OR Eumycetoma OR Actinomycetoma OR Oral lesions OR oral localization.

Control: não aplicado à busca

Outcomes: Epidemiology OR Prevalence OR Prevalences OR Incidence OR Incidences.

2.3 Triagem e seleção dos estudos

Dois revisores selecionaram os trabalhos de forma independente, primeiro pelo título e resumo. Se o título englobava o tema e o resumo apresentava informações relevantes para os critérios de elegibilidade, o trabalho foi selecionado para uma leitura completa do texto. Em seguida, documentos de texto completo que preencheram os critérios de elegibilidade foram identificados e incluídos na revisão perfazendo um total de nove artigos. Os revisores pesquisaram manualmente as listas de referências de todos os estudos selecionados para artigos adicionais relevantes que poderiam atender aos critérios de elegibilidade deste estudo totalizando nove artigos. Os trabalhos que preencheram todos os critérios de seleção foram incluídos na pesquisa, os que não preencheram os critérios e/ou não se mostraram relevantes foram excluídos.

Os critérios de elegibilidade foram os seguintes:

- Artigos publicados na íntegra;
- Em seres humanos;
- Case reports / classical articles / reviews sobre o tema;
- Considerados tanto estudos prospectivos quanto retrospectivos;
- Eumicetomas acometendo os maxilares que tenham sido diagnosticados Histopatologicamente e/ou microbiologicamente;
- Artigos publicados em inglês, português ou espanhol;
- Publicações entre janeiro de 2000 e novembro de 2017.

2.4 Extração de dados

Quanto à questão de pesquisa, posterior à seleção dos artigos por dois pesquisadores, os dados foram extraídos dos trabalhos selecionados por um único revisor. Após uma avaliação preliminar dos trabalhos selecionados, os dados foram apresentados de forma descritiva. As informações sobre país de origem, quantidade de pacientes, localizações das lesões, diagnóstico histopatológico e/ou microbiológico, manejo e desfecho dos casos estão apresentados na Tabela 1.

2.5 Análise dos dados

Os dados coletados a partir dos artigos de relatos/séries de casos, artigos de pesquisa e revisão de literatura foram analisados em conjunto, considerando os seguintes dados: região geográfica dos casos, número total de indivíduos em cada artigo; sexo predominantemente acometido; idade mínima e máxima, mais média de idade; localizações topográficas das lesões; tipo de agente etiológico, tratamento e desfecho dos casos. Destacamos a possibilidade de vieses de publicação, de idioma e de seleção dos estudos incluídos no trabalho, já que os estudos se limitaram quanto ao período de publicação, a apenas três idiomas e a artigos com conteúdo publicado na íntegra, sendo este último critério responsável pela exclusão de 68 trabalhos.

3 RESULTADOS

Após analisar os dados desta revisão ficou constatado que o número total de casos de micetomas que comprometam o complexo estomatognático correspondeu a 212 casos distribuídos em 15 artigos.

Quanto ao sexo, dos 212 casos de micetomas identificados, apenas 11 artigos tinham informação individualizada sobre o sexo dos pacientes, perfazendo um total de 35 pacientes, sendo 20 (57,4%) do sexo feminino e 15 (42,6%) do masculino. Muitos dos artigos, por serem de pesquisa e/ou revisões, não traziam dados específicos sobre sexo e localização da lesão em cada paciente conforme detalhado na tabela 1.

Idade: a tabela 1 mostra que dos 212 casos analisados, em apenas 11 artigos foram encontradas informações individualizadas sobre a idade dos pacientes, perfazendo um total de 11 pacientes, com idade variando dos 02 a 60 anos, com média de 33,36 anos. A figura 02 exhibe a distribuição dos casos em relação às faixas etárias.

Localização geográfica: a maioria dos estudos com casos acometendo o complexo estomatognático foram publicados no Sudão, considerando o número de casos no total, verificou-se uma maior ocorrência Sudão e Itália com 58 e 25 casos respectivamente. Na América latina foram citados o Brasil e o México com dois casos cada.

Localização anatômica: dos casos acometendo o complexo estomatognático, a maioria ocorreu nos seios maxilares com 204 (96,22%) casos (Figura 03).

Tipo de micetoma: Verificou-se que 16 artigos tinham informação sobre os tipos de micetomas, perfazendo 208 (98,1%) dos 212 casos acometendo o complexo estomatognático, destes, 207 (97,6%) eram eumicetomas e 1 (2,4%) actinomicetoma (Tabela 01).

Agente etiológico: verificou-se que dez artigos apresentaram informação sobre o tipo de microrganismo associado aos micetomas, predominando o gênero *Aspergillus*, com destaque para as espécies *A. fumigatus* e *A. niger*, (Tabela 01).

4 DISCUSSÃO

Os micetomas são processos infecciosos crônicos, de progressão lenta caracterizada pela formação de lesões geralmente associadas à tumefação, fístula e drenagem de pus contendo grãos, geralmente de cor enegrecida. Usualmente ocorrem em localizações extra-gnáticas, principalmente nos membros inferiores, porém a região de cabeça e pescoço, incluindo os tecidos estomatognático podem ser afetados (ARENA et al, 2017; NINOFF et al, 2015; FERNANDES et al, 2009).

Quanto à patogenia dos micetomas em geral, relata-se que os microrganismos usualmente implantam-se nos tecidos após penetrarem por feridas e/ou vias naturais. Fatores como saúde geral debilitada, diabetes e desnutrição em geral podem facilitar a infecção e proliferação dos agentes etiológicos, levando a uma infecção mais invasiva e disseminada (FAHAL et al, 1995).

Três tipos de respostas imunes têm sido descritas em resposta aos grãos de micetomas Tipo a: Degranulação de neutrófilos e aderência à superfície dos grãos, levando a desintegração gradual dos mesmos. Fora da zona dos neutrófilos forma-se uma reação granulação contendo macrófagos, linfócitos e células plasmáticas; 2) Tipo b: Desaparecimento da população de neutrófilos e chegada de macrófagos para eliminar os grãos e os detritos de neutrófilos; 3) Tipo c: caracterizada pela formação de granulomas com células epitelíoides (FAHAL et al, 1995).

As células T também parecem desempenhar um papel importante no desenvolvimento dos micetomas, com a participação das respostas por linfócitos Th2, produzindo interleucinas 4 e 10, bem como as respostas Th1 encontradas na fase aguda da infecção (el HASSAN et al, 2001). A resposta imune humoral, com a participação de anticorpos do tipo IgM, inicialmente, e depois por IgG, tem sido apontada como possível causa do lento desenvolvimento da infecção (SALINAS-CARMONA, PÉREZ-RIVERA, 2004).

Fatores relacionados aos patógenos também tem sido apontados na patogenia dos micetomas, certas espécies são mais comumente encontradas em indivíduos imunocompetentes como a *N. brasiliensis*, a qual parece sobreviver aos primeiros ataques do sistema imune inato. Estudo em animais associados a inoculação de *N. brasiliensis*, sugeriu que as frações de microrganismos são quimiotáticas para granulócitos e o influxo resultante de leucócitos para o local de inoculação é atribuído à atividade quimiotática induzida por produtos de ativação do

sistema complemento, peptídeos de formil-metionilo, leucotrieno B4 e um fator solúvel de baixo peso molecular produzido por macrófagos. Os constituintes lipídicos e polissacarídeos de bactérias provavelmente participam da resposta inflamatória induzindo a liberação de produtos de ativação do complemento ou estimulando os macrófagos a secretar potentes mediadores da resposta inflamatória aguda, a qual não parece ser capaz de controlar a infecção, mas provavelmente explica a cura parcial espontânea que é vista na doença (EKIZLERIAN et al, 1987).

Por outro lado, espécies como *Nocardia farcinica*, *Nocardia nova* e *Nocardia cyriacigeorgica* afetam principalmente indivíduos imunossuprimidos. A persistência do microrganismo após a inoculação inicial parece estar relacionada à sua capacidade de evadir as defesas do hospedeiro através de adaptações que incluem o espessamento da parede celular e produção de melanina, que os protegem contra a radiação ultravioleta e a destruição por macrófagos alveolares, inclusive lise enzimática ou por oxidantes, inclusive contra drogas antifúngicas (EKIZLERIAN et al, 1987).

Algumas vezes o diagnóstico dos micetomas é tardio devido ao seu crescimento lento, gradativo e geralmente indolor, podendo chegar até meses, antes de procurar atendimento médico – odontológico, quando se percebe disfunção na fonação, mastigação e deglutição (AHMED et al, 2003; NAI, STUANI, STUANI, 2011). Os micetomas extra-gnáticos ocorrem com maior frequência em regiões geográficas Africanas, fato que também se constata na frequência dos casos com acometimento de tecidos no complexo estomatognático (NINOFF et al, 2015; BONIFAZ et al, 2014; MARTINEZ et al, 2013; WELSH et al, 2012). No presente estudo verificou-se que na América, os casos acometendo o complexo estomatognático foram relatados no Brasil e no México, perfazendo dois e um casos, respectivamente, sendo todos eumicetomas, associados ao gênero *Aspergillus* (MARTINS, RIBEIRO ROSA, 2016; NAI, STUANI, STUANI, 2011). Tais dados discordam dos achados da literatura referentes à frequência de micetomas extra-gnáticos em países de maior ocorrência na América como o México, onde os actinomicetomas são mais frequentes (98%), associados à *Nocardia* (86%) e *Actinomadura madurae* (10%), enquanto que os eumicetomas são menos frequentes nesse país, com apenas 2% dos casos (ARENAS et al, 2017).

Os micetomas em geral são mais comuns em homens do que em mulheres numa proporção de 3:1, o que pode ser associado às atividades laborais executadas

pela população masculina, e por outro lado, à proteção conferida por fatores hormonais em mulheres (ARENAS et al, 2017; ZIJLSTRA et al, 2016; LÓPEZ-MARTINEZ et al, 2013; HERNÁNDEZ-HERNÁNDEZ et al, 1995), no entanto, nesta revisão foram observados resultados contrastantes, pois a maioria dos casos identificados no complexo estomatognático (57,1%) ocorreu em mulheres, tais resultados talvez possam estar associados ao fato que usualmente as mulheres procuram com maior frequência atendimento médico/odontológico quando acometidas por lesões no complexo estomatognático, provavelmente movidas por preocupação com a estética facial.

Considerando a idade, os micetomas em geral ocorrem com maior frequência em pacientes na terceira década de vida, com uma média de idade de 34,5 anos (ZIJLSTRA et al, 2016; NINOFF et al, 2015; BONIFAZ et al, 2014; LOPEZ-MARTÍNEZ et al, 2013; WELSH et al, 2012). Os resultados deste trabalho corroboram a literatura, uma vez que a maioria (54,5%) dos micetomas relatados no complexo estomatognático identificados ocorreu entre a segunda e terceira décadas de vida, com média de idade de 33,4 anos. Nesse contexto, cita-se que nessa faixa etária o ser humano está na fase mais produtiva laboralmente falando, ficando mais exposto à infecção pelos agentes etiológicos de micetomas, inoculados principalmente através de lesões traumáticas.

No tocante à localização anatômica dos casos de micetomas em geral, embora a literatura aponte ser baixa a frequência na região de cabeça e pescoço (van de SANDE, 2013), alguns casos têm sido relatados acometendo tecidos do complexo estomatognático. Constatou-se que a maioria dos casos ocorreu no seio maxilar e que em muitos desses casos cogitou-se a possibilidade das lesões terem ocorrido como complicações de tratamentos endodônticos (SAMAILA, MBIBU, OLUEOLE 2007; DUFUR et al, 2005; MATJAZ, JERNEJ, MIRELA 2004; MENSI et al, 2004; CHOMBILLON, JANKOWSKI 2004; CHAO 2004; MARTINEZ, RIBEIRO ROSA, 2004; SHAMS, MOTAMEDI, 2003; KHOMGKUNTHIAN, REICHART, 2001).

Os pacientes com eumicetoma no seio maxilar apresentaram sintomas clássicos de sinusite crônica, com secreções nasais, dor e até tumefação na região de zigoma, estes sintomas característicos da sinusite contribuem ainda mais para atraso no início correto do tratamento de eumicetomas. Pacientes assintomáticos usualmente são diagnosticados após exames radiográficos de rotina (COSTA et al, 2007).

Considerando a possibilidade de desenvolvimento de micetomas como complicações de tratamentos endodônticos, e os resultados deste estudo sobre a maior ocorrência de eumicetomas no seio maxilar, associados ao gênero *Aspergillus*, relata-se que o óxido de zinco, cimento utilizado para cimentação de materiais obturadores dos canais radiculares, pode favorecer a proliferação de espécie de fungos associados aos eumicetomas. Sugere-se que o cimento endodôntico, quando extravasado para o seio maxilar, atua como corpo estranho que, ao mudar a função do Epitélio de Schneider do seio, paralisa os cílios e a depuração mucocílica, criando assim uma situação de estase das secreções, promovendo obstrução do seio maxilar e conseqüentemente um ambiente anaeróbio favorável ao crescimento de espécies do gênero *Aspergillus* (MENSI et al, 2004; MATJAZ, JERNEJ, MIRELA 2004). Sabe-se que a prática endodôntica moderna preconiza o uso de outros materiais como alternativas de obturação de canais radiculares, principalmente à base de hidróxido de cálcio, pela sua maior biocompatibilidade e menores efeitos citotóxicos, no entanto, nos países de maior ocorrência de micetomas, infelizmente a realidade econômica-social é precária, não tendo acesso a técnicas mais modernas de tratamentos endodônticos, prevalecendo o uso de cimento de óxido de zinco.

Com relação ao acometimento da língua, é importante destacar o relatado na literatura, da associação desses processos infecciosos com traumatismos, uma vez que a língua constitui um dos tecidos orais comumente alvo de traumas, servindo as feridas como porta de entrada para a inoculação dos microrganismos (MOHAMED et al, 2012). Nesse contexto, em áreas endêmicas da África e Ásia a população alvo de micetomas, usualmente utilizam fragmentos de madeira para higienização dos dentes, sugerindo-se que os mesmo possam atuar como indutores de traumatismos orais, explicando parcialmente a ocorrência de micetomas orais, porém, controversamente, relata-se que nessas regiões endêmicas como Sudão, Paquistão, África, lêmen muitas das madeiras utilizadas como utensílios de higiene oral parecem ter propriedades fitoterápicas antibacterianas, fato que, por outro lado, é apontado como fator que explicaria a raridade das lesões orais de micetomas nessas partes do planeta (MOHAMED et al, 2012; ALMAS, AL-LAFI, 1995).

Além do antes citado, relata-se a possibilidade de infecção das amígdalas por *Actinomyces*, provavelmente de forma retrógrada, através do complexo ductal, fato que poderia estar associado aos casos identificados nesta pesquisa localizados na

região lateral da face (SULEIMAN, FAHAL 2013; MOHAMED et al, 2012; MENSI et al, 2004; MATJAZ JERNEJ, MIRELA, 2004).

Diferentemente do relatado na literatura sobre a frequência dos micetomas, extra-gnáticos, onde 60% dos casos correspondem a actinomicetomas e 40% eumicetomas (WELSH et al, 2012), os casos de eumicetomas representaram a maioria (97,6%) dos casos que acometeram os tecidos do complexo estomatognático que constituíram a amostra deste estudo, corroborando os achados da literatura em relação aos agentes causais desses processos infecciosos em localizações diferentes do complexo estomatognático. Nesse contexto, é importante destacar o relatado na literatura de que muitas pessoas moradoras de áreas endêmicas do planeta são constantemente expostas a agentes etiológicos de actinomicetomas, porém poucos desenvolvem a doença, sugerindo o possível atuação de imunidade adquirida (VERA-CABRERA et al, 2012; WELSH et al, 2012).

Para a identificação dos microrganismos é necessário o exame bacteriológico ou micológico. Nesse contexto relata-se que nos micetoma extra-gnáticos a *Actinomadura pelletieri*, *Actinomadura madurae*, *N brasiliensis* e *S somaliensis* são usualmente agentes etiológicos de actinomicetomas, enquanto que os eumicetomas são causados principalmente por *Madurella mycetomatis*, mas também por *Pseudoallescheria boydii* e *Rhinocladiella atrovirens* (ZIJLSTRA et al, 2016; NAI, STUANI, STUANI, 2011; DEING et al, 2003), no entanto, neste estudo verificou-se que a predominância dos eumicetomas no complexo estomatognático foi associada a agentes etiológicos do gênero *Aspergillus*.

O diagnóstico diferencial dos actinomicetomas inclui esporotricose, tuberculose, osteomielite, coccidiomicoses, botriomicose, ou outras infecções fúngicas e até neoplasias em tecidos ósseo e moles (WELSH et al, 2012).

Os exames imagiológicos são importantes no diagnóstico diferencial dos micetomas. Através da análise com raios X podem ser observadas características sugestivas de osteomielites crônicas. A tomografia computadorizada oferece melhores detalhes da lesão óssea, evidenciando osteodestruição, reação periosteal, erosão e envolvimento de tecidos moles, por sua vez a ressonância magnética aponta-se como a técnica mais sensível por detectar baixas frequências dentro da lesão, podendo inclusive revelar lesões pequenas de baixa intensidade de sinal em imagens ponderadas T1 e T2, que correspondem aos grãos dos micetoma (CZECHOWSKI, NORK, LESTRIGANT, 2001). O diagnóstico diferencial de

micetomas com outros tipos de infecções ou até lesões tumorais pode também ser realizado com o auxílio de ultrassonografia, onde se observam os grânulos como numerosas estruturas afiladas hiperecoicas dentro de múltiplas cavidades hipoeoicas (NAI, STUANI, STUANI, 2011; CZECHOWSKI, NORK, LESTRIGANT, 2001).

Histopatologicamente os micetomas caracterizam-se como processos inflamatórios granulomatosos com área central de secreção purulenta, contendo característicos grãos negros, limitados por uma fina cápsula fibrosa, porém este tipo de análise não permite a identificação de espécies de bactérias e fungos associados aos micetomas, nem determina a sua sensibilidade a agentes quimioterapêuticos. A histoquímica com corante para bactérias Gram-positivas é utilizada para o diagnóstico dos actinomicetomas, enquanto que a coloração por Grocott-Gomori é utilizada para a identificação de fungos dos eumicetomas. Somente análise microbiológica permite a identificação específica das espécies de microrganismos associadas às lesões (NAI, STUANI, STUANI, 2011; CZECHOWSKI, NORK, LESTRIGANT, 2001).

Usualmente os micetomas são tratados com antifúngicos e antibacterianos com tempo de tratamento variando entre meses a anos (WELSH et al, 2014). De forma geral, os autores citam que, para os actinomicetomas o tratamento é realizado com antimicrobiano, geralmente fazendo uma associação de drogas como sulfato de amicacina por via intramuscular 15mg/kg a cada 12 horas por três semanas e sulfatoxazol e trimetoprima 400e 80 mg ao dia por 5 semanas. Para os eumicetomas se faz necessária uma combinação de tratamento medicamentoso e excisão cirúrgica. Os antifúngicos comumente usados são itraconazol a 400-800 mg /dia com tratamento variando em média um ano, considerado o “padrão ouro” devido a efeitos colaterais mínimos, no entanto o Sulfametoxazol + trimetoprima 800/160 mg duas vezes ao dia têm sido usados com sucesso, porém se fazem necessários testes audiométricos periódicos para verificar efeitos otológicos indesejados. As intervenções cirúrgicas baseiam-se no tamanho da lesão, variando de pequenas a grande excisão local e debridamentos múltiplos. A maioria dos casos de eumicetomas do seio maxilar têm sido tratados com sucesso através da cirurgia endoscópica paranasal (ZIJLSTRA et al, 2016; NENOFF et al, 2015; WELSH et al, 2012; PANDHI et al, 2010).

4 CONCLUSÕES

Baseado na análise da literatura consultada conclui-se que:

Relatos de micetomas no complexo estomatognático são pouco frequentes em relação a micetomas extra-gnáticos, e naqueles encontrados, ainda há relatos e pesquisas que não trazem informação completa sobre dados epidemiológicos dos casos.

À diferença dos dados epidemiológicos de micetomas extra-gnáticos, a maioria dos casos relatados no complexo estomatognático ocorreu em mulheres, entre a segunda e terceira décadas de vida.

Dentre os micetomas os eumicetomas constituem o principal tipo de lesão que comprometem os tecidos do complexo estomatognático, acometendo principalmente o seio maxilar, estando associados com maior frequência a espécies do gênero *Aspergillus*.

O micetomas no complexo estomatognático predominam no seio maxilar, como possíveis complicações de tratamentos endodônticos, destacando-se a importância de profissionais da odontologia na ocorrência, diagnóstico e manejo de lesões de micetomas com ocorrência no complexo estomatognático.

O manejo dos actinomicetomas e eumicetomas do sistema estomatognático tem sido o tratamento medicamentoso e cirúrgico, com ênfase à cirurgia endoscópica paranasal realizada nos eumicetomas do seio maxilar.

*Mycetomas in the stomatognathic complex: an integrative review***ABSTRACT**

Mycetomas are chronic granulomatous inflammatory processes of the skin and subcutaneous tissues, can affect bones associated with eumycotic agents (fungi) or actinomycoses of exogenous origin that can rarely compromise tissues of the stomatognathic complex. The objective of this research was to present an integrative review of the literature about epidemiological profile of patients with mycetomas in the stomatognathic complex, etiological agents, topographic locations more frequent, clinical characteristics and management of lesions. A search was conducted in the MEDLINE database, using the following criteria: articles published in full, from 2000 to 2017, in English, Portuguese or Spanish, case report, classical articles and reviews, using the following descriptors: Mycetoma, Actinomycetoma, Eumycetoma, Oral cavity, Jaws, Jaw, Jaw, and their mesh terms. Results: A total of 15 articles about mycetomas affecting tissues of the stomatognathic complex were included, of which, 7 articles were case reports, 4 of research and 5 of literature review, totalizing 212 patients with mycetomas in the stomatognathic complex, with predominance of lesions in the maxillary sinus. Patients between the second and third decades of life were more affected. It is concluded that, even though it is rare in the head and neck region, mycetomas need to be included in the differential diagnosis when tumors occur in the stomatognathic complex. The profile of the occurrence of mycetomas in the stomatognathic complex is characterized by being predominant in females, in the third decade of life and especially in the maxillary sinus, suggesting the possible association of these cases with complications of endodontic treatments, highlighting the importance of dentistry professionals on the occurrence, diagnosis and management of mycetoma lesions in the stomatognathic complex.

Key-words: Mycetoma. Eumycetoma. Actinomycetoma. Stomatognathic complex.

REFERÊNCIAS

- AHMED, A.O.; VAN LEEUWEN, W.; FAHAL, A. Mycetoma caused by *madurella mycetomatis*: a neglected infectious burden. **The Lancet Infectious Diseases**. v.4, n.9, p.566, 2004.
- AHMED, A.O.; VAN LEEUWEN, W.; FAHAL, A. Mycetomas caused by *madurella mycetomatis*: a neglected infectious burden. **The Lancet Infectious Diseases**. v.4, n.9, p. 79-566, 2004.
- ALMAS, K.; AL-LAFI, T.R. The Natural Toothbrush. **World Health Forum**. v.16, n.2, p.10-206, 1995.
- ARENAS, R.; MORENO-COUTIÑO, G.; WELSH O. Classification of Subcutaneous and systemic mycoses. **Clinics in Dermatology**. v.30, n.4, p.369-371, 2012.
- BONIFAZ, A. et al. Mycetoma: experience of 482 cases in a single Center in Mexico. **PLOS Neglected Tropical Diseases**. v.8, n.8, p.3102, 2014.
- COSTA, F. et al. Surgical treatment of *Aspergillus* mycetomas of the maxillary sinus: Review of the literature. **Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology**. v.103, n.6, p.23-29, 2007.
- CZECHOWSKI J.; Nork, M.H.; Lestringant G., E. MR and other imaging methods in the investigations of mycetomas. **Acta Radiol**. v.42., n.1, p. 24-26. 2001.
- CHAO, T.K. Triple discrete fungus balls of the paranasal sinuses. **Otolaryngology-Head and Neck Surgery**. v.131, n.6, p.1014-5, 2004.
- CHOMBILLON, M.A.; JANKOWSKI, R. What are the advantages of the endoscopic canine fossa approach in treating maxillary sinus aspergillomas? **Rhinology International Journal**. v.42, n.4, p.230-5, 2004.
- DEING et al. Mycetoma 130 cases. **Ann Dermatol Vénéréol**. v.130, p. 16-9 2003
- DUFOUR, X. et al. Paranasal sinus fungus ball and surgery: a review of 175 cases. **Rhinology International Journal**. v.43, n.1, p.34-9, 2005.
- EKIZLERIAN, S.M. et al. Studies on the pathogenesis of actinomycotic mycetoma in animals injected with fractions isolated from *Nocardia brasiliensis*. **Br J Exp Pathol**. V.68, n.1, p.115-23, 1987.

el HASSAN, A.M. et al. The immunopathology of actinomycetoma lesions caused by *Streptomyces somaliensis*. **Trans R Soc Trop Med Hyg.** v.95, n.1, p.89–92, 2001.

ESTRADA, R. et al. Eumycetoma. **Clinics in Dermatology.** v.30, n.4, p.389-396, 2012.

FAHAL, A. et al. Head and neck mycetoma: the mycetoma research centre experience. **PLOS Neglected Tropical Diseases.** v.9, n.3, p.0003587, 2015.

FAHAL, A. et al. Mycetoma in the Sudan: an update from the mycetoma research centre, university of Khartoum, Sudan. **PLOS Neglected Tropical Diseases.** v.9, n.3, p.0003679, 2015.

FAHAL, A.H. et al. The host tissue reaction to *Madurella mycetomatis*: New classification. **J Med Vet Mycol.** v.33, n.1, p.15–7, 1995.

FERNANDES et al. Citodiagnosis of actinomycetoma. **Diagnostics Cytopathology.** v. 37 n.7, 2009.

HERNÁNDEZ-HERNÁNDEZ et al. *Nocardia Brasiliensis*; in vitro and in vivo growth response to steroid sex hormones. **Mycopathologia.** V. 132 p.79-85 1995.

HERNANDEZ-HERNANDEZ, F. et al. *Nocardia brasiliensis*: In vitro and in vivo growth response to steroid sex hormones. **Mycopathologia.** v.132, n.2, p.79–85, 1995.

JOSHI, A. et al. Oral eumycetoma of infancy: a rare presentation and a brief review. **Journal of Craniofacial Surgery.** v.42, n.1, p.35-40, 2014.

KHONGKHUNTHIAN, P.; REICHART, P. A. Aspergillosis of the maxillary sinus as a complication of overfilling root canal material into the sinus: report of two cases. **Journal of Endodontics.** v.27, n.7, p.476-8, 2001.

LOPEZ-MARTINEZ, R. et al. Update on the epidemiology of mycetoma in Mexico. A review of 3933 cases. **Gaceta Medica De Mexico.** v.149, n.5, 586-592, 2013.

MARTINS, W.D.; RIBEIRO ROSA, E.A. Aspergillosis of the maxillary sinus: review and case report. **Scandinavian Journal of Infectious Diseases**. v.36, n.10, p.758-761, 2004.

MATJAZ R., JERNEJ P., MIRELA K. Sinus Maxillary Mycetoma of Odontogenic Origin: Case Report. **Braz Dent J**. v 15 n 3. P 248-250. 2004.

MÉNDEZ-TOVAR, L.J.; DE BIÈVE, C.; LÓPEZ-MARTÍNEZ, R. Effects of human sex hormones on *in vitro* development of agents of eumycetomes. **J Mycol Méd**. V.1, p.141–3, 1991.

MENSI, M. et al. Mycetoma of the maxillary sinus: endodontic and microbiological correlations. **Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology**. v.98, n.1, p.119-23, 2004.

MOHAMED, E.S.W. et al. Tongue actinomycetoma due to actinomadura madurae: a rare clinical presentation. **International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery**. v.70, n,11, p.622-624, 2012.

NAI, G.A.; STUANI, M.L.D.T.; STUANI, L.A.S. Case report: oral cavity eumycetoma. **Revista do Instituto de Medicina Tropical de São Paulo**. v.53, n.3, p.165-168, 2011.

NINOFF P. et al. Eumycetoma and actinomycetoma – an update causative agents, epidemiology, pathogenesis, diagnostics and therapy. **JADV**. v 29. p 1873-1883 2015.

PADHI, S.; UPPIN, S.G. et al. Mycetoma in South India: retrospective analysis of 13 cases and description of two cases caused by unusual pathogens: neoscytalidium dimidiatum and aspergillus flavus. **International Journal of Dermatology**. v.49, n.11, p.1289-1296, 2010.

RODE, M.; PODBOJ, J.; KOGOJ-RODE, M. Sinus maxillaris mycetoma of odontogenic origin case report. **Braslian Dental Journal**. v.15, n.3, p.248-250, 2004.

SALINAS-CARMONA, M.C.; PÉREZ-RIVERA, I. Humoral immunity through immunoglobulin M protects mice from an experimental actinomycetoma infection by *Nocardia brasiliensis*. **Infect Immun**. v.72, p.5597–604, 2004.

SAMAILA, M.O.A.; MBIBU, H.N.; OLUWOLE, O.P. Human mycetoma. **Surgical Infections**. v.8, n.5, 2007.

SHAMS M.G, MOTAMEDI, M.H. Aspergilloma of the maxillary sinus complicating an oroantral fistula. **Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology**. v.96, n.1, p.3-5, 2003.

SULEIMAN, A.M.; FAHAL, A.H. Oral cavity eumycetoma: a rare and unusual condition. **Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology**. v.115, n.4, p.23-25, 2013.

VAN de SANDE, W.W. Global burden of human mycetoma: a systematic review and meta-analysis. **PLOS Neglected Tropical Diseases**. v.7, n.11, p.2550, 2013.

VERA-CABRERA, L. et al. Host defenses in subcutaneous mycoses. **Clin Dermatol**, v.30, n.4, p.382–88, 2012.

WELSH, O., et al. Actinomycetoma and advances in its treatment. **Clinics in Dermatology**, v.30, n.4 p.372–381, 2012.

ZIJLSTRA E.E., et al. Mycetoma: a unique neglected tropical disease. **Lancet Infect Dis**, v.16, n.1, p.100-112, 2016.

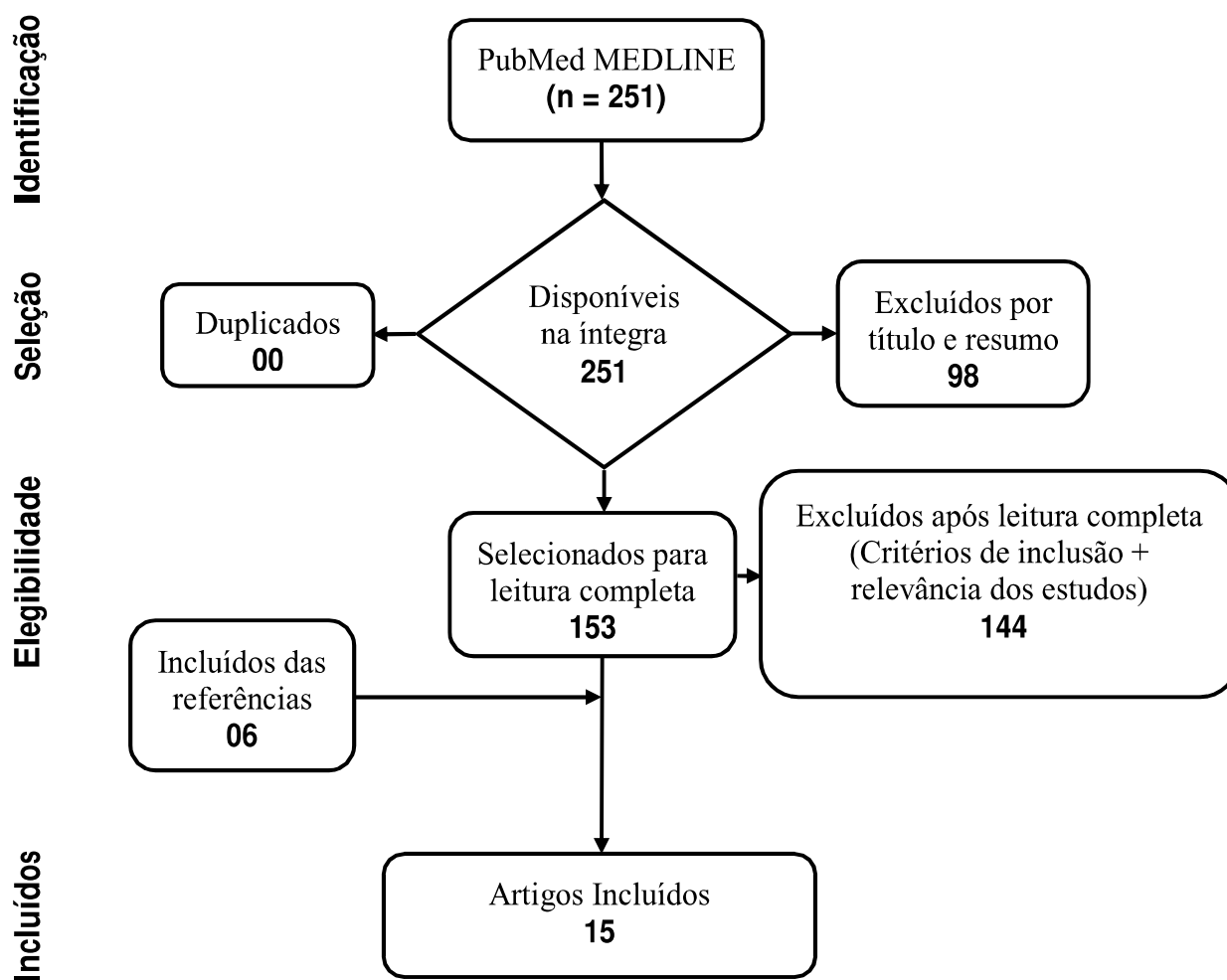


Figura 1. Fluxograma de busca de artigos sobre micetomas no complexo estomatognático. Araruna – PB, 2017.

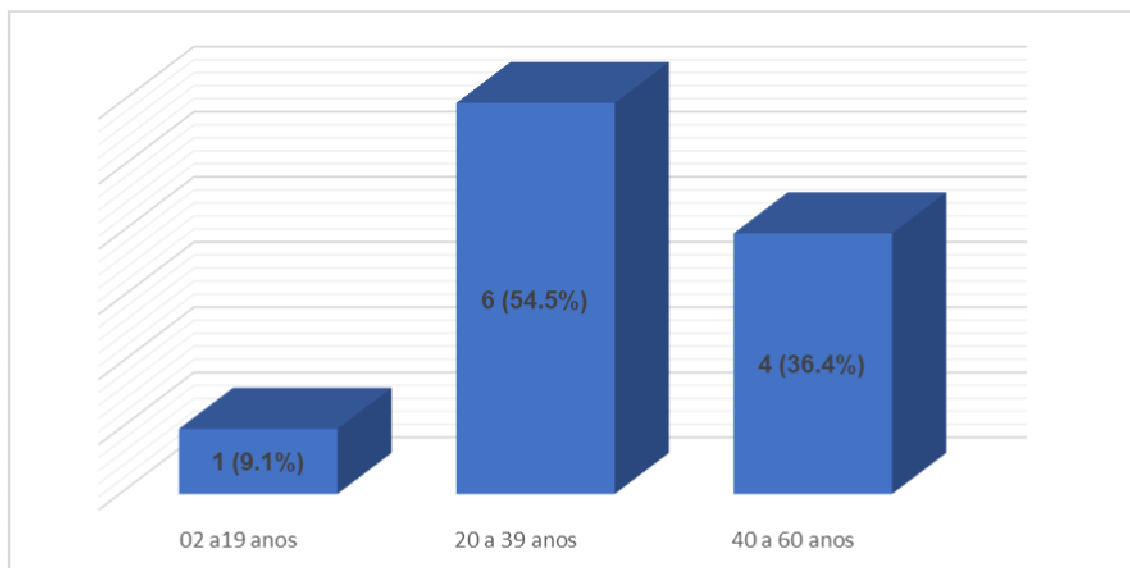


Figura 02. Distribuição dos micetomas no complexo estomatognático em relação à faixa etária dos pacientes. Araruna – PB, 2017.

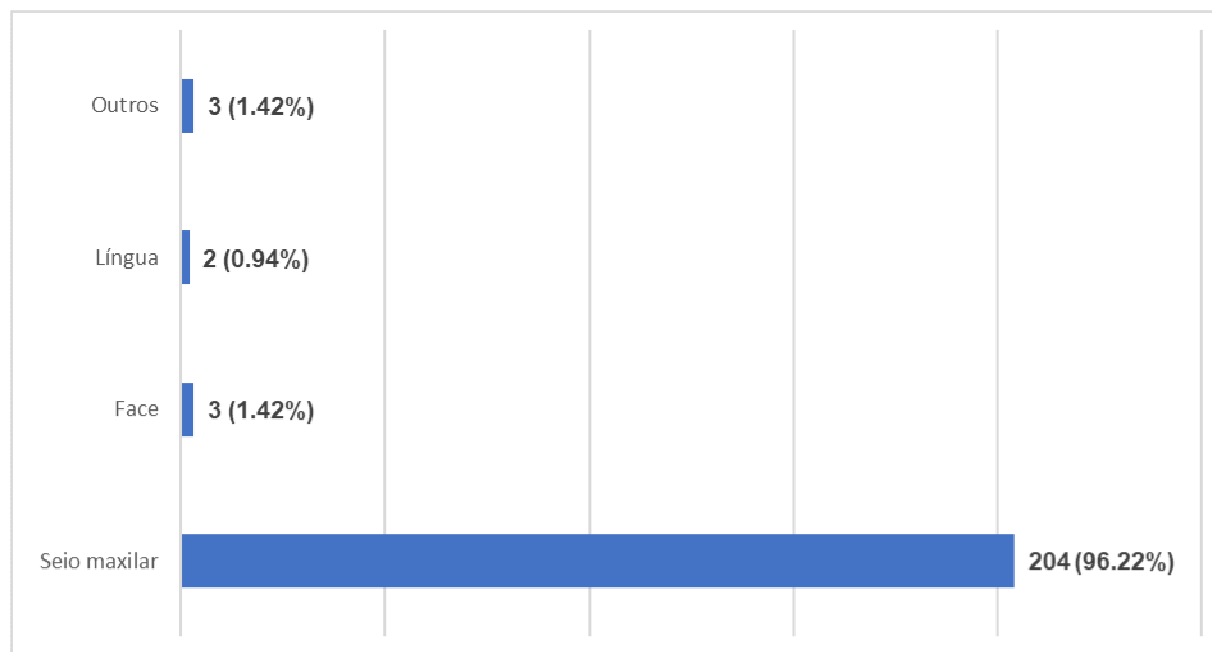


Figura 03. Distribuição dos micetomas no complexo estomatognático em relação à localização anatômica. Araruna – PB, 2017.

Tabela 1. Relatos de micetomas no complexo estomatognático. Araruna – PB, 2017.

Autores	País	n	Sexo	Idade	Localização	Tipo	Agente etiológico	Manejo	Desfecho
1. Khongkhunhian, Reichart (2001)	Taiândia	02	F	25 anos	Seio maxilar	Eumicetomas	<i>A. niger</i> <i>Aspergillus</i>	Cirurgia periapical, Exodontia de dente 14 e antroposcopia	S/I
2. Martins, Ribeiro Rosa (2003)	Brasil	01	F	30 anos	Seio Maxilar	Eumicetoma	<i>Aspergillus fumigatus</i>	Cirurgia do seio maxilar e Itraconazol	Cura
3. Shams, Motamedi (2003)	Itália	01	S/I	S/I	Seio maxilar	Eumicetoma	S/I	Cirurgia	S/I
4. Martins, Rosa (2004)	México	01	F	30 anos	Seio maxilar	Eumicetomas	<i>A. fumigatus</i>	Cirurgia, Itraconazol	Cura
5. Mensi et al (2004)	Itália	25	15 F 10 M	45 a 63 anos	Seio Maxilar	16 Eumicetoma S/I *	<i>Aspergillus fumigatus</i> <i>A. Niger</i> <i>A. flavus</i> <i>A. terreus</i>	S/I	S/I
6. Majjaz, Jenerj, Mirela (2004)	Eslovênia	01	S/I	22 anos	Seio Maxilar	Eumicetoma	<i>Aspergillus fumigatus</i>	Cirurgia endoscópica do seio	Cura
7. Chombillon, Joankowski (2004)	França	19	S/I	S/I	Seio maxilar	Eumicetoma	<i>Aspergillus</i>	Endoscopia cirúrgica via fossa Canina	Sem recorrência, porém 03 casos tiveram complicação de secreção purulenta
8. Chao (2004)	USA	01	F	56 anos	Seio maxilar	Eumicetoma	<i>Aspergillus</i>	Cirurgia endoscópica do seio	Cura

Autores	País	Pacientes	Sexo	Idade	Localização	Tipo	Agente etiológico	Manejo	Desfecho
9. Martins, Rosa (2004)	México	01	F	30 anos	Seio maxilar	Eumicetomas	<i>A. fumigatus</i>	Cirurgia, Itraconazol	Cura
10. Dufour et al (2005)	França	150	S/I	S/I	Seio maxilar	Eumicetoma	S/I	Cirurgia endoscópica dos seios	Caso do seio maxilar refratário ao tratamento
11. Samaila Mbibu, Oluwole (2007)	Nigéria	01	M	49	Lado direito da face e boca	S/I	S/I	S/I	S/I
12. Nai , Suani, Suani (2011)	Brasil	01	M	43	Palato	Eumicetoma	S/I	Tratamento Cirúrgico e Cetoconazol Oral	Cura
13. Mohamed et al (2012)	Sudão	01	M	60	Língua	Actinomictoma	<i>Actinomyadura madurae</i>	Tratamento cirúrgico, Sulfato de Amikacina e Cotrimoxazol	Cura
14. Suleiman, Fahal (2013)	Sudão	01	M	25	Língua	Eumicetoma	<i>Maduraela micetomatis</i>	Tratamento cirúrgico e Cetoconazol	S/I
15. Joshi et al (2014)	Índia	01	M	2	Ângulo da Mandíbula	Eumicetoma	S/I	Tratamento com Cetoconazol	S/I
16. Fahal et. al 2015	Sudão	03	S/I†	S/I †	2 Face 01 cavidade oral 01 Maxilar	S/I †	S/I †	S/I†	S/I†

* Nove casos negativos microbiologicamente para microscopia com evidencias de infecção fúngica. † Informação no artigo para a amostra em geral e não para as localizações específicas.