Mucormycosis Mimicking Tracheal Tumor: A Case Report

Reza Ansari1, Payman Dabirmoghaddam1, Maryam Lotfi2, Mina Gheitani3, Saeed Sohrabpour1, Farrokh Heidari4*

1. Department of Otorhinolaryngology and Head & Neck Surgery, Amir-Alam Hospital, Tehran University of Medical Sciences, Tehran, Iran.
2. Department of Pathology, Amir-alam Hospital, Tehran University of Medical Sciences, Tehran, Iran.
3. Department of Internal Medicine, Shahid-beheshti Hospital, Qom University of Medical Sciences, Qom, Iran
4. Department of Otorhinolaryngology and Head & Neck Surgery, Amir-Alam Hospital, Tehran University of Medical Sciences, Tehran, Iran

ABSTRACT

A 49-year-old woman with a history of diabetes mellitus (DM), and hypothyroidism referred to the emergency ward complaining of shortness of breath which had lasted for three weeks. Due to inspiratory and expiratory stridor in the clinical examination, a tracheal lesion was proposed for her. In computed tomography (CT) scan (without contrast) of the neck and chest, a lesion resembling a malignant tracheal tumor was observed spreading around the cervical trachea. Subsequently, the patient’s respiratory distress worsened and she underwent tracheostomy under general anesthesia. During tracheostomy, a white to creamy lesion that resembled necrosis with extensive granulation was seen in cervical trachea, and a biopsy was taken. Histopathological reports showed evidence of acute and chronic inflammation, in necrotic background, along with aseptate fungi which confirmed mucormycosis. Initially, intravenous liposomal amphotericin-B was selected as an antifungal drug which was discontinued due to drug-induced acute renal failure. Posaconazole suspension was replaced as an antifungal drug. After about six weeks, the patient was discharged from the hospital in good general condition. Contrary to few previous studies on mucormycosis of the trachea and lower airways, tracheal disease was limited in our patient; therefore, we avoided debridement of the conflict site and tried to control the disease by controlling the underlying disease (DM), and antifungal therapy. Finally, the desired result was achieved. It should be noted that all patients who have been reviewed in the previous published studies have had a wider conflict sites compared to our patient. Therefore, due to the lack of standard treatment for this disease, our therapeutic approach in this study can be considered as an option in limited and localized cases.

Keywords: Fungal infection, Mucormycosis, Posaconazole, Trachea, Tracheostomy

Received: 2020/06/11; Accepted: 2021/01/03; Published Online: 2021/04/09

Introduction

Invasive mucormycosis is a fatal opportunistic infection caused by the Mucoraceae family. Various underlying diseases such as diabetes mellitus (DM) or other immunocompromised diseases, especially hematological malignancies can lead to the invasion of this fungus (1).
Invasion to trachea and larynx is one of the rarest manifestations of this infection leading to airway obstruction and life-threatening complications (2, 3).

Diagnosis is based on microscopic histopathology, and the recommended drug treatment is liposomal amphotericin while posaconazole remains for salvage therapy (4).

In this manuscript, we report our experience in managing a patient with tracheobronchial mucormycosis. We hope our study can provide physicians with a solution for similar cases.

**Case Presentation**

A 49-year-old woman with DM, and hypothyroidism (controlled by metformin, and levothyroxine, respectively) came in complaining about fatigue, myalgia, mild fever, and progressive shortness of breath for about three weeks. On initial physical examination, she had moderate to severe respiratory distress and stridor with supra-ternal retraction. An inspiratory and expiratory stridor was heard in auscultation of the lungs. The patient did not have the necessary cooperation to perform the indirect laryngoscopy.

Therefore, it was decided to have an electrocardiogram (ECG) and computed tomography (CT) scan of the neck and chest without contrast.

The ECG was normal and the patient was sent to the radiology ward for the CT scan.

The CT scan revealed intraluminal lesions and inflammation in the patient's subglottic and cervical trachea, which led to the possibility of a malignant tumor due to infiltration around the trachea (Figure 1).

---

**Figure 1.**

a. Narrowing lumen of cervical trachea by an intraluminal lesion with inflammation and infiltration to the tissues around of trachea (axial view).

b. Axial view of lumen of trachea with magnification.
As the dyspnea worsened, the patient underwent rigid and flexible bronchoscopy, and cervical esophagoscopy under general anesthesia.

There was no obvious lesion on laryngoscopy. In bronchoscopy, 2-cm-long white to creamy lesions containing granulation and necrotic tissue were seen in the trachea (3 cm below the patient’s true vocal cords (TVCs)), circumferentially. A part of the anterior wall of the trachea was necrotic.

Flexible bronchoscopy (Figure 2) and CT-scan showed no evidence of lung involvement and the disease was isolated in proximal of trachea.

Then, the patient underwent esophagoscopy, in which the cervical esophagus was completely inflamed and purulent discharge was seen. To prevent esophagus perforation, she kept NPO (nothing by mouth) and at the same time, she underwent jejunostomy. Due to the extension of the disease, it was decided to place a tracheostomy between the third and fourth rings of trachea. From the anterior wall of the trachea during tracheostomy, a biopsy was sent for pathology and until the patient’s pathology results were prepared, she was treated with vancomycin (1 gr/bid) and meropenem (1gr/TDS). The patient’s high blood sugar was treated with insulin for further control.

In pathology slides, some broad aseptate fungal elements were seen in a necrotic background that confirmed mucormycosis (Figure 3a yellow arrows). Fragments of the respiratory mucosa with acute and chronic inflammation were seen (Figure 3b).
According to the pathology report, an infectious disease specialist started liposomal amphotericin-B (3mg/Kg/day) therapy for the patient. After three days, the patient developed a cutaneous rash, and the patient’s initial level of serum creatinine, which was normal (1mg/dl), reached 6.4mg/dl. Interstitial nephritis caused by the amphotericin-B was suggested, and by a nephrologist’s advice, vancomycin was discontinued and meropenem was adjusted. The patient also became severely hydrated. After two weeks, the patient’s serum creatinine level returned to its initial level. Liposomal amphotericin was also discontinued. According to the advice of an infectious disease specialist and the study of Spellberg et al. (5), posaconazole suspension began (5cc (200mg)/QID), and continued until clinical signs, including fever and constitutional symptoms, disappeared and there was no concern about recurrence. After four weeks of treatment and improvements the patient’s condition, bronchoscopy and esophagoscopy were performed again under general anesthesia. Inflammation of the esophagus had disappeared. Total Stenosis of trachea was seen 3 cm below the TVCs. Then, the esophagogram with barium was performed for the patient and the report was normal. Therefore the oral feeding began for her and the jejunostomy was removed. The patient was discharged and advised to take two posaconazole suspensions for two weeks at home and control DM with insulin under the supervision of an endocrinologist.

About 18 months after the first onset of the disease, she underwent an end-to-end anastomosis of the cervical trachea, removing four cartilaginous rings, and while a year has passed since her operation, she no longer has a problem

Discussion

Isolated tracheal mucormycosis (TM) is very rare and the current knowledge of TM comes from several case reports or relatively small case series. Early diagnosis and antifungal therapy are the major factors of prognosis (6).

Dealing with mucormycosis in other parts of the body, it is recommended to use aggressive debridement in various studies (6-8).

Fortunately, due to the isolation of the disease in the trachea and the lack of involvement of the lower airways in our case, which was seen on flexible bronchoscopy and CT scans of the patient’s lungs, we did not find debridement of necrotic tissue necessary. This was because of the possibility of complications such as loss of intact tracheal cartilage rings and esophageal perforation. Also, the loss of cartilage that could be cured with medical treatment may make it more difficult for the next possible stage of surgery, such as end-to-end anastomosis of trachea. However, in some studies, surgical or endoscopic debridement was performed (2, 3, 6, 8, 9).

Due to the respiratory conditions, it was decided to install a tracheostomy for her, to ensure her breathing. In most tracheobronchial mucormycosis reports, such as ours, a tracheostomy has been implanted for the patient (8, 10).

Conclusion

Contrary to few previous studies on mucormycosis of the trachea and lower airways, tracheal disease was limited in our patient; therefore, we avoided debridement of the conflict site and tried to control the disease by controlling the underlying disease (DM), and antifungal therapy. Finally, the desired result was achieved.

It should be noted that all patients who have been reviewed in the previous published studies have had a wider conflict sites compared to our patient.

Therefore, due to the lack of standard treatment for this disease, our therapeutic approach in this study can be considered as an option in limited and localized cases.

Acknowledgment

None.
Funding
None.

Conflict of Interest
Authors declared no conflict of interests.

Ethical statement
All ethical standards are met in this study.

Patient’s Consent
A written consent was obtained from the patient.
موکورماکوز مهلت توده ترجمه: گزارش موردن

چکیده

درمان 49 ساله با سابقه بیماری‌های دیابت ملیتوس و هایپوئیدی بیماری که تا زمان اعلام شده در همگی این بیماری‌ها در زمینه بازخوانی شده و نتایج نشان داده که در این بیماری‌ها استفاده از میکروب شناسی و پزشکی به عنوان یکی از روش‌های درمانی انتخاب شده است.

مقدمه

موکورماکوز مهاجم یک عفونت سطح مغزی است که به دلیل وجود موکورماکوزاتور، باعث جذبیت در مغز می‌شود.

اطلاعات مقاله

نوع مقاله: فرح حیدری، گروه گفت و حلق و بینی و جراحی سر و گردن، بیمارستان امیر علی، دانشگاه علوم پزشکی تهران، تهران، ایران

 Rosa-antisari 1 پیمان دیربرمقدم 1 مریم لطفی 2 مینا قطیانی 3 سعید سهراب‌پور 1 فرح حیدری* 4

1 گروه گفت و حلق و بینی و جراحی سر و گردن، بیمارستان امیر علی، دانشگاه علوم پزشکی تهران، تهران، ایران

2 گروه پاتولوژی، بیمارستان امیر علی، دانشگاه علوم پزشکی تهران، تهران، ایران

3 گروه بیمارگاهی داخلی، بیمارستان شهید بهشتی، دانشگاه علوم پزشکی، قم، تهران.
استریدور دمی و بازدیدی شنیده می‌شود. بیمار همگرا بیماری مد نظر نداشت.

بنابراین تصمیم به انجام EKG و سپس سایر تست‌ها بود. بیمار در حال فلج بود.

سایر اطلاعات در حال ساخت انجام شد.

شکل 1: آ:- یادآوری درون‌الهی در ناحیه سفید بود.

B: هماس زیر عضلانی اطراف نا به‌طور مناسب بود.

تهگامی که دیستس تنفسی ایجاد شد، بیمار به اتاق عمل انتقال یافت و تحت بهره‌شدن عمومی برای ایشان، برودکسیوی رجید و فلکسیون از طرفی بود. در این‌حال بیمار در لارگوسکوپی ضایعات قابل توجهی دیده نشد. در برودکسیوی ضایعات سفید تا کرم رنگی که حاوی گرانولاسیون و بافت‌های

نکروزه بود به طول دو سانتی‌متر در ناحیه سفید ضایعات ۳ سانتی‌متری زیر طناب‌های صوتی قطعی دیده می‌شود. که دور تا دور نا در این‌سانه بود. همچنین دیواره قطعی نای از بین رفته بود.
قدامی نای بیوپسی به عمل آمد و تا زمانی که جواب پاتولوژی حاضر شد از آن استفاده می‌شود (یک گرم دو بار در روز) و مروینم (یک گرم سه بار در روز) تحت درمان قرار گرفت. برای کنترل بیشتر قد خون او، از انسولین تزریقی استفاده شد.

در اسلایدهای پاتولوژی، عدالتی قارچ بدون سیتا در بافت زمینه نکروز شده که موجب مورماکوسپسی بود مشاهده شد (شکل A). پیکان‌های زرد رنگ همچنین نکته‌هایی از مخاط تنفسی با التهاب حاد و مزمن دیده شد (شکل B). }

برونکوسکوپی فلکسیبل (شکل 2) و سی تی اسکن نشان داد که شواهدی از درگیری به وجود ندارد. پس از آن ایشان ازوفاگوسکوپی شدند که مواردی کاملاً متنه بهبود و ترشحات چرکی در آن وجود داشت. برای جلوگیری از سوخاری کردن مري بیمار ممنوع از غذا خوردن دهانی شد و همزمان با آن برای ایشان زننستومی تعبیه شد.

با توجه به گسترش بیماری برای ایشان تصمیم گرفتیم که ترکتوستومی در بین حلقوهای سوم و چهارم تعبیه نمایم. از دیواده

شکل 2. بافت سفید ته ای در لومین قسمت گردیدن رحم (flexible endoscopy image).
شاکل ۳. آ. زرد رنگ مشخص است برای نکروز که با فلش های زرد رنگ مشخص شده است. B. قسمت هایی از

مختاط تنفسی همراه با التهاب حاد و مزمن

با توجه به گزارش پاتولوژی، مختصات بیماری‌های عفونی برای آمفوتروپین‌ها، بیماری‌های درون بیماری ۳ میلی‌گرم به ارایه کوب‌گر در روز، با استفاده از روز بیماری دچار راش‌های پوستی و افزایش کارتنین درجه از یک میلی‌گرم بر دسی‌آنتی به ۶/۴ شد. این نفرینی ناشی از دراوی آمفوتروپین برای ایشان مطرح شد و با توصیه پزشک مختصات نفوذی‌زی آمفوتروپین ایشان قطع شد. همچنین ویکوساپیس زیر قطع شد و دور داروی موربوم شد.

هراترایی برای بیمار انجام شد. بعد از دو هفته کارتنین سرم بیمار به سطح اولیه بارگشت. با توجه به توصیه مختصات بیماری‌های عفونی و مطالعه سوسپانسیون پسکونازول (۵ سی‌سی که معادل ۲۰۰ میلی‌گرم است به ضرورت جهار در روستای ایشان شروع شد. این ضرورت به دلیل داشته باشد که تب بیمار و سایر علائم کلینیکی از بین رفتن سرطان داده شد. بعد از چهار هفته از گذشت درمان و بهبود وضعیت کلی ایشان تحت پروکسیکوپی و اوزفاگوسکوپی مجدد قرار گرفتند. النهاب مریا به کلی از پرده بود. انسداد کامل نای در سانتی‌متر بی‌تارمه‌های صوتی دیده شد. اوزفاگورگرام با باریک بیمار انجام شد که خوشبختی نرمال بود. و در نابینایی غشاء دهان آغاز شد. دست و زنگوتوسی از ایشان گذاشته نمود. بیمار با دستور داروی پسکونازول برای دو هفته دیگر و کنترل عصب منای خون با انسولین تحت نظر یک متخصص گردید.

حدود ۱۸ هفته بعد از شروع بیماری، ایشان تحت عمل جراحی، پیوند انگشتی به انتهای ترنش هیرودنی قرار گرفت که در طی این عمل چهار حلقو غضروفی ناسالم از نای برداشتند و در
بیشتر راه‌هایی آن‌ها نسبت به بیمار این مطالعه بوده است. بنابراین با توجه به نیروی استقرار در دمانتی برای این بیماران، نحوه برخورد درمانی می‌تواند به عنوان یکی از دوگانه‌های درمانی در مواردی که مورکوامایکوزس محدود و لولاییزه است، باشد.

نتیجه‌گیری
برخلاف اندکی گزارشات قبلی، در مورد مورکوامایکوزس نای و راه‌های هویایی تحتانی و توجه به محدود بودن بیماری به ناحیه نای، ما از دیدگاه محل درگیر خودداری کردن و سعی نمودیم که بیماری ایشان را از طریق کنترل بیماری‌های زیسته‌ای ایشان و داروی ضدفارج درمان کنیم و خوشبختانه در نهایت نتیجه مطلوب حاصل شد. البته باید به این نکته توجه شود که تمام مقالاتی که راجع به این بیماران گزارش و منتشر شده است حاکی از درگیری

Reference

1. Skiada A, Pagano L, Groll A, Zimmerli S, Dupont B, Lagrou K, et al. Zygomycosis in Europe: analysis of 230 cases accrued by the registry of the European Confederation of Medical Mycology (ECMM) Working Group on Zygomycosis between 2005 and 2007. Clin Microbiol Infect. 2011;17(12):1859-67. [DOI:10.1111/j.1469-0691.2010.03456.x] [PMID]

2. Luo LC, Cheng DY, Zhu H, Shu X, Chen WB. Inflammatory pseudotumoural endotracheal mucormycosis with cartilage damage. European respiratory review : an official journal of the European Respiratory Society. 2009;18:186-9. [DOI:10.1183/09059180.0000709] [PMID]

3. Mattioni J, Portnoy J, Moore J, Carlson D, Sataloff R. Laryngotracheal mucormycosis: Report of a case. Ear, nose, & throat journal. 2016;95:29-39.

4. Cornely OA, Arikan-Akdagli S, Dannaoui E, Groll AH, Lagrou K, Chakrabarti A, et al. ESCMID and ECMM joint clinical guidelines for the diagnosis and management of mucormycosis 2013. Clin Microbiol Infect. 2014;20 Suppl 3:5-26. [DOI:10.1111/1469-0691.12371] [PMID]

5. Spellberg B, Walsh TJ, Kontoyiannis DP, Edwards J Jr., Ibrahim AS. Recent advances in the management of mucormycosis: from bench to bedside. Clin Infect Dis. 2009;48(12):1743-51. [DOI:10.1086/599105] [PMCID]

6. Brown RB, Johnson JH, Kessinger JM, Sealy WC. Bronchovascular mucormycosis in the diabetic: an urgent surgical problem. Ann Thorac Surg. 1992;53(5):854-5. [DOI:10.1016/0003-4975(92)91450-N]

7. Hashemzadeh S, Tubbs RS, Fakhree MBA, Shoja MM. Mucormycotic pseudoaneurysm of the common carotid artery with tracheal involvement. Mycoses. 2008;51(4):347-51. [DOI:10.1111/j.1439-0507.2007.01487.x] [PMID]

8. Mohindra S, Gupta B, Gupta K, Bal A. Tracheal Mucormycosis Pneumonia: A Rare Clinical Presentation. Respiratory Care. 2014;59:e178-e81. [DOI:10.4187/respcare.03174] [PMID]

9. He R, Hu C, Tang Y, Yang H, Cao L, Niu R. Report of 12 cases with tracheobronchial mucormycosis and a review. Clin Respir J. 2018;12(4):1651-60. [DOI:10.1111/crj.12724] [PMID]

10. Wolf O, Gil Z, Leider-Trejo L, Khaffif A, Biderman P, Fliss DM. Tracheal mucormycosis presented as an intraluminal soft tissue mass. Head & Neck. 2004;26(6):541-3. [DOI:10.1002/hed.20055] [PMID]