

Invasive intra-abdominal basidiobolomycosis in a 9-year-old girl:

A case report and literature review

Sutheera Talaichang¹, Ussanee Srirompothong¹, Trakarn Saelim¹, Piyapharom Intarawichian²

¹Department of Pediatrics, Khon Kaen Hospital

²Department of Pathology, Khon Kaen University

Received March 13, 2024 Revised June 24, 2024 Accepted June 24, 2024

Abstract

Background: Basidiobolomycosis is a rare fungal infection that can occur in the immunocompetent hosts, typically presenting as a subcutaneous skin infection. While invasive intra-abdominal basidiobolomycosis is a rare manifestation.

Objective: We reported a patient with a right buttock mass, and the patient was then diagnosed with invasive intra-abdominal basidiobolomycosis.

Case report: A 9-year-old girl presented with a history of buttock mass, progressive enlargement of pelvic mass, and progressive clinical obstructive uropathy with increasing creatinine and oliguria. After the additional radiological and pathological examinations, the patient was diagnosed with basidiobolomycosis and treated with potassium iodide and co-trimoxazole for one year and five months combined with percutaneous urinary catheter drainage for the first few weeks. After a one-year follow-up, we found the masses had absorbed with non-recurrence of the disease. The creatinine level indicated the normal range, and the patient eventually urinated by herself.

Conclusion: The patient with invasive intra-abdominal basidiobolomycosis, manifesting as masses in the abdomen invaded nearby organs, is rare. The initial diagnosis is complicated because of the clinical was not specific.

Keywords: Invasive intra-abdominal basidiobolomycosis, basidiobolomycosis, pediatric

โรคติดเชื้อรา basidiobolomycosis ในอวัยวะในช่องท้องชนิดรุกราน

ในผู้ป่วยเด็กหญิงอายุ 9 ปี: รายงานผู้ป่วยและการทบทวนวรรณกรรม

สุธีรา ตะไธซ¹, อุษณีย์ ศรีร่วมโพธิ์ทอง¹, ตระการ แซ่ลิ้ม¹, ปิยการมย์ อินทริวิเชียร²

¹กลุ่มงานกุมารเวชกรรม, โรงพยาบาลขอนแก่น

²ภาควิชาพยาธิวิทยา, มหาวิทยาลัยขอนแก่น

บทคัดย่อ

ความเป็นมา: โรคติดเชื้อรา basidiobolomycosis เป็นโรคที่พบน้อยมาก สามารถเกิดได้ในผู้ป่วยที่มีภูมิคุ้มกันปกติ มักจะมีการแสดงทางการติดเชื้อที่ระบบผิวหนัง อาการแสดงที่พบน้อยมาก คือ การติดเชื้อในอวัยวะในช่องท้องชนิดรุกราน

วัตถุประสงค์: เพื่อรายงานผู้ป่วย 1 ราย ที่มาด้วยก้อนที่บริเวณก้นข้างขวา จากนั้นตรวจพบการติดเชื้อราในอวัยวะในช่องท้องชนิดรุกราน

รายงานผู้ป่วย: ผู้ป่วยเด็กหญิงอายุ 9 ปี มาด้วยไข้และก้อนที่ก้นข้างขวา ต่อมากล้าพบก้อนที่ท้องด้านขวา ร่วมกับปัสสาวะไม่ออก จากนั้นตรวจเพิ่มเติมพบก้อนที่อุ้งเชิงกรานขวา และก้อนกดเบียดท่อไตทำให้ไตบวมทั้งสองข้าง มีค่าการทำงานของไต (creatinine) เพิ่มขึ้นร่วมกับปัสสาวะไม่ออก หลังจากได้รับการตรวจทางรังสีวิทยาเพิ่มเติม และส่งตรวจชิ้นเนื้อได้รับการวินิจฉัยว่าติดเชื้อ basidiobolomycosis และได้รับการรักษาด้วย potaasium iodide และ co-trimoxazole เป็นเวลา 1 ปี 5 เดือน ร่วมกับใส่สายสวนระบายปัสสาวะทางผิวหนังออกจากกรวยไตในระยะแรก หลังจากติดตามการรักษาเป็นระยะเวลา 1 ปี พบว่าก้อนยุบลงและไม่พบการกลับเป็นซ้ำของโรค ค่า creatinine กลับมาปกติ และสามารถปัสสาวะออกได้เอง

สรุป: ผู้ป่วยติดเชื้อรากลุ่ม basidiobolomycosis ในอวัยวะในช่องท้องชนิดรุกราน ซึ่งมีอาการแสดงที่มาด้วยก้อนในช่องท้องและกดเบียดอวัยวะข้างเคียงซึ่งเป็นอาการที่พบน้อย การวินิจฉัยในระยะแรกเป็นไปได้ยากเนื่องจากอาการแสดงที่ไม่จำเพาะ

คำสำคัญ: โรคติดเชื้อรา basidiobolomycosis ในช่องท้องชนิดรุกราน, โรคติดเชื้อในเด็ก

บทนำ

Zygomycota เป็นเชื้อราที่ก่อโรคชนิดรุกราน แบ่งออกเป็น 2 กลุ่ม คือ Mucorales และ Entomophthorales ซึ่งก่อโรคในผู้ป่วยที่มีภูมิคุ้มกันแตกต่างกัน โดยตัวแทนของกลุ่ม Mucorales ที่เป็นที่รู้จักกันแพร่หลาย คือ Mucormycosis ซึ่งมักก่อโรคในผู้ป่วยภูมิคุ้มกันต่ำ เชื้อราในกลุ่ม Entomophthorales มักก่อโรคในผู้ป่วยที่มีภูมิคุ้มกันปกติ¹ โรคติดเชื้อรา basidiobolomycosis เกิดจากเชื้อรา *Basidiobolus ranarum* ซึ่งอยู่ในเชื้อรากลุ่ม Entomophthorales ในปี ค.ศ. 1886 มีรายงานว่าพบเชื้อนี้ครั้งแรกจากการแยกเชื้อออกมาจากกบ เชื้อราชนิดนี้สามารถพบได้ในดิน ปุ๋ยหมัก ทางเดินอาหารของสัตว์ครึ่งบกครึ่งน้ำ การแพร่กระจายเชื้อมาสู่มนุษย์ยังไม่มีข้อสรุปที่ชัดเจน แต่สันนิษฐานว่าเกิดจากการบาดเจ็บไม่รุนแรงซ้ำกันหลายครั้ง การสูดดมหรือรับประทานสปอร์ของเชื้อที่มีในสิ่งแวดล้อมเข้าไปในร่างกาย

การติดเชื้อรา *Basidiobolus ranarum* ส่วนมากพบในผู้ป่วยเด็ก พบได้น้อยในวัยรุ่นและในผู้ใหญ่² มีรายงานอุบัติการณ์พบการติดเชื้อราชนิดนี้ในทวีปแอฟริกา เอเชีย ลาตินอเมริกา ออสเตรเลีย³ การติดเชื้อราชนิดนี้พบมากบริเวณชั้นใต้ผิวหนังบริเวณแผ่นหลัง ก้น หรือขา ขณะที่การติดเชื้อแบบแพร่กระจายของอวัยวะภายในพบได้น้อยมาก เช่น การติดเชื้อภายในทางเดินอาหาร (gastrointestinal basidiobolomycosis)⁴ การวินิจฉัยผู้ป่วยกลุ่มนี้ทำได้ยาก อาการแสดงไม่จำเพาะ มักมีไข้ ปวดท้อง ตรวจเพิ่มเติมพบก้อนภายในช่องท้อง ทำให้สับสนกับพยาธิวิทยาของก้อนที่เกิดจากมะเร็ง วัณโรคหรือการติดเชื้อราชนิด mucormycosis⁵ การวินิจฉัยที่เป็นมาตรฐานทำได้โดยการตรวจชิ้นเนื้อหรือการตรวจเพาะเชื้อ⁶ โดยจะตรวจพบเม็ดเลือดขาวชนิด eosinophil ในชิ้นเนื้อและตรวจพบ Splendore-Hoeppli phenomenon กล่าวคือเป็นเชื้อราที่มีเม็ดเลือดขาว eosinophil อยู่ล้อมรอบ⁷ วิธีการรักษาโรคกลุ่มนี้ทำได้ยากและยังไม่มีข้อสรุปที่แน่นอน เนื่องจากเป็นโรคที่มีอุบัติการณ์ต่ำ บางรายงานมีการรักษาโดยใช้ยารักษาร่วมกันหลายชนิดรวมกับการผ่าตัด เช่น potassium iodide หรือ amphotericin B หรือยาด้านเชื้อรากลุ่ม azole เป็นต้น

นอกจากนี้ยังมีรายงานผลการรักษาที่หลากหลายตั้งแต่ก้อนยุบหายไปจนถึงยังหลงเหลือพยาธิสภาพของก้อนอยู่ และมีผู้ป่วยบางส่วนไม่ได้มาติดตามการรักษา⁸ ส่วนในการติดเชื้อภายในช่องท้องแบบรุกรานและกดเบียดต่อทางเดินปัสสาวะและส่งผลให้ท่อปัสสาวะบวมทำให้ปัสสาวะออกลดลงและต้องใช้สายระบายปัสสาวะออกจากกรวยไตผ่านทางผิวหนังเพื่อระบายปัสสาวะ และการรักษาโดยใช้ potassium iodide ร่วมกับ co-trimoxazole ยังไม่เคยมีรายงานในประเทศไทยว่าตรวจพบการติดเชื้อที่เป็นชนิดรุกรานสามารถทำให้ก้อนยุบลงจนไม่หลงเหลือพยาธิสภาพของก้อนได้ ผู้เขียนจึงได้รายงานผู้ป่วย invasive intra-abdominal basidiobolomycosis รายนี้เพื่อเป็นข้อมูลให้ใช้เป็นแนวทางในการซักประวัติ การวินิจฉัย และวิธีการรักษาโรคให้มีประสิทธิภาพต่อไป

รายงานผู้ป่วย

ผู้ป่วยเด็กหญิง อายุ 9 ปี ภูมิลำเนา อำเภอนองเรือ จังหวัดขอนแก่น มาด้วยก้อนที่ก้นข้างขวาโตขึ้นมาประมาณ 1 เดือน เมื่อ 2 ปีก่อนมีก้อนที่ก้นด้านขวาขนาด 1.5 เซนติเมตรไปโรงพยาบาลชุมชนได้รับการวินิจฉัยที่ก้น ได้รับการรักษาเบื้องต้นโดยการกรีดระบาย แต่ไม่พบหนอง ก้อนยุบลง หลังจากนั้นก็มีก้อนขึ้นที่บริเวณเดิมลักษณะสีเข้มกว่าปกติ (hyperpigmented mass) ได้รับการส่งต่อไปรักษากับกุมารศัลยแพทย์ ได้ทำการกรีดระบายก้อนแต่ไม่พบหนองและนัดติดตามการรักษา ขณะติดตามการรักษาก่อนค่อย ๆ โตขึ้นเรื่อย ๆ จาก 1.5 เซนติเมตร เป็น 7 เซนติเมตร กุมารศัลยแพทย์ได้ส่งตรวจด้วยคลื่นเสียงความถี่สูง (ultrasound) ที่บริเวณก้อนพบลักษณะก้อนที่ชั้นใต้ผิวหนัง (subcutaneous mass) ให้การวินิจฉัยก้อนจากเลือดออก (hematoma)

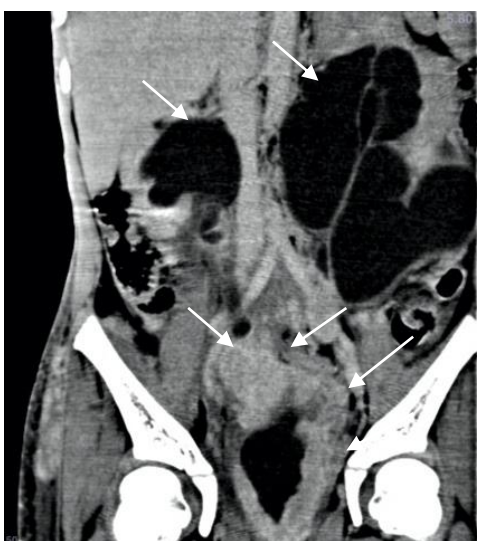
1 ปี ต่อมา ผู้ป่วยสังเกตว่าก้อนที่ก้นมีขนาดใหญ่ขึ้น ไม่เจ็บบริเวณ ก้อน ก้อนมีขนาดเส้นผ่าศูนย์กลางขนาดประมาณ 5 x 7 เซนติเมตร ได้รับการตรวจ computerized tomography abdomen (CT abdomen) พบก้อนเนื้อที่บริเวณก้นทางด้านขวาขนาด 8.7 เซนติเมตร x 4.4 เซนติเมตร x 17.3 เซนติเมตร และก้อนเนื้อบริเวณอุ้งเชิงกรานทางด้านขวาขนาด 3.8 เซนติเมตร X 6.9 เซนติเมตร X 7 เซนติเมตร กดเบียดท่อไตทางด้านขวา หลังจากนั้นได้รับการผ่าตัดชิ้นเนื้อโดยวิธี excisional biopsy ไปตรวจทางพยาธิวิทยา พบว่าเป็น non-cancerous granuloma ร่วมกับปรึกษาศัลยแพทย์ระบบทางเดินปัสสาวะเพื่อช่วยวินิจฉัยและติดตามการรักษาโรค กุมารศัลยแพทย์ให้การวินิจฉัย hematoma และนัดติดตามการรักษา 4 เดือนต่อมายังคงพบก้อนมีขนาดโตขึ้นอย่างต่อเนื่อง หลังจากนั้นผู้ป่วยขาดการติดตามการรักษา 1 เดือนก่อนมาโรงพยาบาล ผู้ป่วยมีไข้ คลำพบก้อนที่ท้องด้านซ้ายและก้อนที่ขาหนีบด้านขวาไม่เจ็บ มีอาการปัสสาวะบ่อย ท้องผูก น้ำหนักลด 5 กิโลกรัมใน 1 เดือน

ผลตรวจทางคลินิก

การตรวจร่างกาย ผู้ป่วยเด็กหญิง รู้สึกตัวดี น้ำหนัก 22 กิโลกรัม (น้อยกว่าเปอร์เซ็นต์ไทล์ที่ 3) ความสูง 131 เซนติเมตร (เปอร์เซ็นต์ไทล์ที่ 50) สัญญาณชีพตรวจพบ อุณหภูมิสูง 38.8 องศาเซลเซียส ชีพจรเร็ว 130 ครั้งต่อนาที อัตราการหายใจและความดันโลหิต อยู่ในระดับปกติ ระดับความอิ่มตัวออกซิเจน ร้อยละ 100 มีภาวะชืด ไม่มีตาเหลือง ตรวจระบบหัวใจปกติ เสียงหายใจปกติ ไม่สามารถคลำไตได้ คลำได้ ก้อนขนาดใหญ่ลักษณะเป็นก้อนแข็งที่บริเวณก้นด้านขวา เจ็บเล็กน้อย ขนาดเส้นผ่าศูนย์กลาง 10 เซนติเมตร จากประวัติและการตรวจร่างกายข้างต้นแพทย์ผู้ทำการรักษาให้การวินิจฉัยแยกโรคมะเร็ง ได้ส่งตรวจ CT abdomen พบ ก้อนบริเวณเอวขวา ก้อนที่ก้นขวามีขนาดใหญ่ขึ้น ก้อนที่เชิงกรานด้านซ้าย และก้อนเนื้อที่บริเวณท้องขวาล่างใกล้กับกระเพาะปัสสาวะ นอกจากนี้ยังพบการหนาตัวของกระเพาะปัสสาวะ พบต่อมน้ำเหลืองบริเวณขาหนีบข้างขวาโต

การตรวจวินิจฉัย

ผลการตรวจทางห้องปฏิบัติการ complete blood count (CBC) พบว่า มีภาวะซีด มีเม็ดเลือดขาวและเกร็ดเลือดสูงดังนี้ Hb 8.9 g/dL, Hct 23 %, WBC 19,300 cells/cu.mm. platelet 529,000/cu.mm. (neutrophil 81.2%, lymphocyte 12.2%, monocyte 4.%, eosinophil 2.3%, basophil 0.3%) ระดับเกลือแร่และค่าไตในเลือดดังแสดง Na 134 mmol/L, K 4.39 mmol/L, Cl 102 mmol/L, HCO₃ 15.5 mmol/L, BUN 72 mg/dL, Cr 4.81 mg/dL การตรวจ CT abdomen พบก้อนลักษณะ heterogenous low density lesion ขนาด 9 x 2.4 x 5.8 เซนติเมตร บริเวณเอวขวาและก้อนที่ก้นขวามีลักษณะ heterogenous low density lesion ขนาดใหญ่ขึ้นเป็น 10.4 x 2.1 x 9.2 เซนติเมตร ก้อนที่เชิงกรานด้านซ้ายขนาด 2.4 x 3.5 x 3.5 เซนติเมตร ก้อนเนื้อที่บริเวณท้องขวาล่างใกล้กับกระเพาะปัสสาวะขนาด 3 x 4.4 เซนติเมตร (รูปที่ 1) นอกจากนี้ยังพบการหนาตัวของกระเพาะปัสสาวะ วัดความหนาได้ 1.7 เซนติเมตร พบต่อมน้ำเหลืองบริเวณขาหนีบข้างขวาโต ขนาดใหญ่ที่สุดวัดได้ 4 x 4 เซนติเมตรร่วมกับพบ moderate hydronephrosis ของไตข้างขวา และ severe hydronephrosis ของไตข้างซ้าย ได้ปรึกษากุมารศัลยแพทย์เพื่อตัดชิ้นเนื้อไปตรวจร่วมกับการใส่สายระบายน้ำปัสสาวะจากกรวยไต ผลการตรวจชิ้นเนื้อทางพยาธิวิทยา ให้การวินิจฉัย mucormycosis

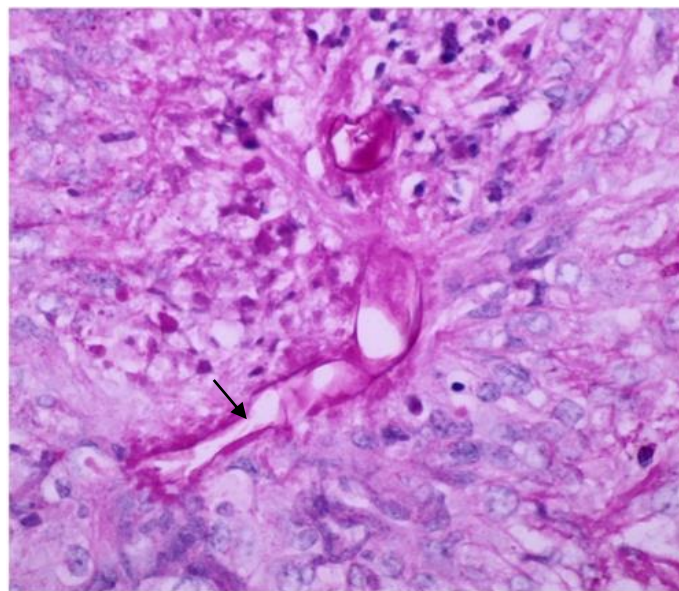


รูปที่ 1 ก้อนที่บริเวณเชิงกรานกดเบียดบริเวณท่อไตและไตทั้งสองข้างบวม

วิธีการรักษา

ผู้ป่วยรายนี้ได้รับการวินิจฉัยเบื้องต้น mucormycosis เนื่องจากผู้ป่วยมีอาการปัสสาวะไม่ออกซึ่งเป็นอาการแสดงของภาวะทางเดินปัสสาวะอุดตัน จึงได้ทำการรักษาโดยใส่สายระบายน้ำปัสสาวะออกจากกรวยไตผ่านทางผิวหนัง หลังจากทำมีภาวะปัสสาวะออกมากประมาณ 8-10 มิลลิลิตร/กิโลกรัม/ชั่วโมง ผู้ป่วยได้รับสารน้ำทดแทนทางหลอดเลือดดำ จากนั้นระดับอิเล็กโทรไลต์ BUN และ Cr กลับมาปกติ ก่อนที่ห้องได้ปรึกษาศัลยแพทย์ผ่าตัดส่องกล้องเพื่อตัดชิ้นเนื้อไปตรวจ ระหว่างนี้ได้รับการรักษาโดย ยา

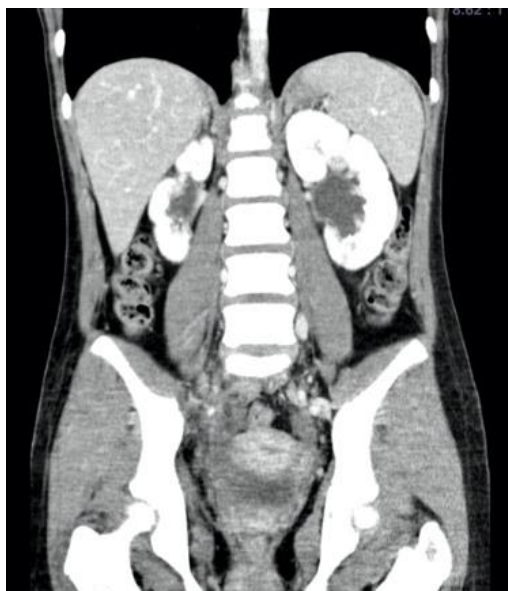
Amphotericin B 1 มิลลิกรัม/กิโลกรัม/วัน ผู้ป่วยได้รับการรักษาโดยได้ยา liposomal amphotericin B รวมทั้งสิ้น 7 สัปดาห์ รวมเข้ารับการรักษานในโรงพยาบาลทั้งสิ้น 103 วัน หลังจากนั้นได้รับยาชนิดรับประทานเป็น itraconazole ขนาด 100 มิลลิกรัม รับประทาน 2 เม็ดตอนเช้าและ 2 เม็ดเย็น กลับบ้าน ก่อนจำหน่ายผู้ป่วยกลับบ้าน ค่า creatinine ลดลงและปัสสาวะออกดีจึงได้ถอดสายระบายน้ำปัสสาวะออก หลังการรักษา 2 เดือน ได้ส่งตรวจด้วย CT ช่องท้องด้วยสารทึบรังสีพบว่าการหนาตัวของกระเพาะปัสสาวะลดลงจาก 1.7 เซนติเมตรเป็น 1.3 เซนติเมตรก้อนที่บริเวณอุ้งเชิงกรานขวามีขนาดลดลงวัดได้ 4.4 x 2.4 x 4.7 เซนติเมตร ก้อนที่บริเวณเอวขวามีขนาดลดลงจาก 9 x 2.4 x 5.8 เหลือ 6.1 x 0.9 x 4.1 เซนติเมตร ก้อนเนื้อที่ก้นขวา ลดลงจาก 10.4 x 2.1 x 9.2 เซนติเมตร เป็น 5.7 x 1.9 x 4.7 เซนติเมตร ต่อมน้ำเหลืองที่ขาขวามีขนาดลดลงจาก 4 เซนติเมตรเป็น 0.8 เซนติเมตรและยังพบการบวมน้ำของไตทั้งสองข้างอยู่ จากผลการตรวจพบที่เกิดจากการตอบสนองต่อการรักษาบางส่วน จึงได้ปรึกษาพยาธิแพทย์เพิ่มเติม ผลชิ้นเนื้อจากกระเพาะปัสสาวะ พบ broad aseptate, ribbon like fungal organism within the granuloma และพบอีโอซิโนฟิลล้อมรอบเชื้อ Splendore–Hoeppli phenomenon (รูปที่ 2) ผลเข้าได้กับ basidiobolomycosis ในผู้ป่วยรายนี้ไม่ได้ส่งชิ้นเนื้อเพาะเชื้อดูเชื้อราตั้งแต่ตอนต้นของการเก็บชิ้นเนื้อจากการผ่าตัด จึงได้ให้การรักษาโดย โฟแทสเซียมไอโอไดด์ 30 มิลลิกรัม/กิโลกรัม/วัน และ co-trimoxazole 10 มิลลิกรัม/กิโลกรัม/วัน เป็นระยะเวลารวมทั้งสิ้น 1 ปี 5 เดือน



รูปที่ 2 ผลชิ้นเนื้อจากกระเพาะปัสสาวะแสดง broad aseptate, ribbon like fungal organism within the granuloma ด้วยกล้องกำลังขยาย 600x

การติดตามและผลลัพธ์

หลังจากติดตามการรักษาเป็นระยะเวลา 1 ปี พบว่าความหนาตัวของกระเพาะปัสสาวะลดลง ไม่พบก้อนเนื้อที่บริเวณอุ้งเชิงกรานขวา ไม่พบก้อนเนื้อที่บริเวณก้น (รูปที่ 3) สามารถปัสสาวะออกได้เองและค่า creatinine ปกติ



รูปที่ 3 หลังติดตามการรักษา 1 ปี ไม่พบก้อนที่บริเวณอุ้งเชิงกราน และไม่พบภาวะไตบวม

อภิปรายและวิจารณ์

ผู้ป่วยรายนี้มาด้วยก้อนที่บริเวณก้นขวาและหลังเชื่อมช่องท้อง (retroperitoneal mass) ร่วมกับมีการกดเบียดของก้อนทำให้เกิดภาวะ obstructive uropathy ภาวะปัสสาวะไม่ออกและค่าไตเพิ่มสูงขึ้น จากผลตรวจเพิ่มเติมนึกถึงก้อนจากการติดเชื้อมากที่สุด เนื่องจากประวัติผู้ป่วยมาด้วยไข้ ก้อนมีขนาดใหญ่ จนกดเบียดท่อปัสสาวะทั้งสองข้างทำให้ผู้ป่วยปัสสาวะไม่ออก (obstructive uropathy) นอกจากนี้สาเหตุที่พบได้คือก้อนจากมะเร็ง ซึ่งนึกถึงได้ในผู้ป่วยรายนี้เนื่องจากมีประวัติน้ำหนักลด เบื่ออาหาร จึงได้ทำการส่งตรวจเพิ่มเติม คือ CT abdomen พบก้อนที่บริเวณอุ้งเชิงกรานจริง จึงได้ส่งตรวจทางพยาธิวิทยาเพิ่มเติมเข้าได้กับการติดเชื้อ mucormycosis ได้รับการรักษาโดย amphotericin B หลังจากรักษา 2 เดือนได้ส่งตรวจ CT abdomen เพื่อติดตามการรักษาพบว่าก้อนในช่องท้องยังมีขนาดเท่าเดิม ทีมแพทย์นึกถึงไม่ตอบสนองต่อการรักษา จึงพิจารณาทบทวนผลชิ้นเนื้อใหม่โดยพยาธิแพทย์เข้าได้กับ basidiobolomycosis ในผู้ป่วยรายนี้เนื่องจากอาการแสดงที่ไม่จำเพาะทำให้ในระยะแรกมีความสับสนระหว่างโรคติดเชื้อรา mucormycosis หรือมะเร็งได้ ซึ่งจากการทบทวนวรรณกรรมพบว่าโรคนี้นับได้น้อย ส่วนใหญ่เป็นการติดเชื้อที่เนื้อเยื่อใต้ผิวหนัง (subcutaneous infection) ลักษณะรอยโรคเป็นก้อน ขอบเขตชัดเจน ค่อนข้างแข็ง firm consistency ไม่เจ็บ⁹ บางคนมาด้วยติดเชื้อบริเวณหูคอจมูก¹⁰ และบางคนมาด้วย invasive disease เช่นติดเชื้อในทางเดินอาหารซึ่ง

อาการจะค่อยเป็นค่อยไป เรื้อรัง^{3,11} ทำให้การวินิจฉัยในระยะแรกเป็นไปได้ยากมักวินิจฉัยแยกโรคกับโรคมะเร็ง หรือการติดเชื้อเรื้อรัง เช่น วัณโรค นอกจากนี้เปรียบเทียบกับการศึกษาก่อนหน้านี้¹² พบว่ามีกรณีศึกษาที่คล้ายกันกล่าวคือในระยะแรกผู้ป่วยได้รับการวินิจฉัยว่าเป็นมะเร็งต่อมน้ำเหลืองหรือวัณโรค แต่ต่อมาจากการตรวจผลชิ้นเนื้อเข้าได้กับการวินิจฉัย basidiobolomycosis จึงเปลี่ยนการรักษาในภายหลัง ทั้งนี้การวินิจฉัย basidiobolomycosis ทำได้ยากเนื่องจากต้องอาศัยการเพาะเชื้อซึ่งถือเป็น gold standard หรือผลชิ้นเนื้อทางพยาธิวิทยาที่เข้าได้¹³ ในกรณีที่มีการติดเชื้อลุกลามในทางเดินอาหารหรือทางเดินปัสสาวะให้ส่งเพาะเชื้อจากอุจจาระหรือปัสสาวะร่วมด้วย ผลเพาะเชื้อขึ้นประมาณร้อยละ 50 ในผู้ป่วยรายนี้ไม่ได้ทำการเพาะเชื้อแต่อาศัยผลตรวจชิ้นเนื้อทำให้ช่วยในการวินิจฉัย basidiobolomycosis ได้ กล่าวคือพบ eosinophils ล้อมรอบเชื้อซึ่งเป็นลักษณะจำเพาะที่เรียกว่า Splendore-Hoepli phenomenon อย่างไรก็ตามเปรียบเทียบกับรายงานการศึกษาอื่นพบว่า การวินิจฉัยส่วนใหญ่ได้จากผลชิ้นเนื้อทางพยาธิวิทยาโดยพบลักษณะ board fungal hyphae with granulomatous inflammation, eosinophilic infiltration and the characteristic Splendore-Hoepli phenomenon^{2,9,11,14,15} และมีบางส่วนวินิจฉัยโดยการเพาะเชื้อ^{3,10} มีเพียงการศึกษาเดียวเท่านั้นที่วินิจฉัยได้จากการเพาะเชื้อและผลชิ้นเนื้อ¹⁶ ผู้ป่วยส่วนใหญ่มีภาวะ eosinophilia นอกจากนี้มีการตรวจหาเชื้อด้วยวิธี polymerase chain reaction (PCR) และการตรวจทางซีโรโลยี¹⁷ รายงานการศึกษาก่อนหน้านี้มีบางส่วนไม่ได้รับการรักษาและไม่ได้รับการติดตามการรักษาที่โรงพยาบาล^{2,14} การรักษาสามารถทำได้โดยการใช้ยาด้านเชื้อรา บางรายอาจใช้การผ่าตัดร่วมด้วย^{3,9} ส่วนใหญ่ประสบความสำเร็จได้ด้วยการใช้ยาด้านเชื้อรา เชื้อส่วนใหญ่ไวต่อ itraconazole, voriconazole, posaconazole คือต่อ caspofungin สำหรับการใช้ยา amphotericin B พบว่าประสบความสำเร็จเพียงร้อยละ 50 เนื่องจากมีการดื้อยา¹⁸ นอกจากนี้มีการใช้ยา potassium iodide และ co-trimoxazole ในการรักษาสำหรับ potassium iodide มีการใช้ในการรักษา basidiobolomycosis มายาวนาน แม้ว่าจะไม่ทราบกลไกการออกฤทธิ์ต่อเชื้อราอย่างชัดเจน มีรายงานการใช้ potassium iodide ในรายที่ตอบสนองต่อการรักษาด้วยยาในกลุ่ม azole ไม่ดี ทำให้ประสบความสำเร็จในการรักษาได้ การรักษาด้วย potassium iodide จะต้องเฝ้าระวังภาวะ hypothyroidism และ hyperkalemia สำหรับระยะเวลาในการรักษา ส่วนใหญ่แนะนำให้รักษาอย่างน้อย 6-8 เดือน และนัดติดตามการรักษาอย่างน้อย 1 ปี เพื่อลดโอกาสเกิดการกลับเป็นซ้ำ¹⁹ ในผู้ป่วยรายนี้ได้รับการรักษาโดย amphotericin B เนื่องจากมีค่าไตเพิ่มสูงขึ้นจึงได้เปลี่ยนยาเป็น liposomal amphotericin B แต่ขนาดก่อนไม่ยวบลง หลังจากได้ทบทวนผลชิ้นเนื้อจึงเปลี่ยนยาเป็นโพแทสเซียมไอโอไดด์ร่วมกับ cotrimoxazole ในการรักษาเป็นเวลา 1 ปี 5 เดือน จากนั้นติดตามการรักษาหลังหยุดยา 1 ปี ก่อนยวบลงและไม่พบการกลับเป็นซ้ำของโรค ข้อจำกัดสำหรับผู้ป่วยรายนี้คือการวินิจฉัยในระยะแรกเป็นไปได้ยากเนื่องจากอาการแสดงที่ไม่จำเพาะ

บทสรุป

Basidiobolomycosis เป็นโรคที่วินิจฉัยได้ยาก ในผู้ป่วยที่มาด้วยก้อนในชั้นใต้ผิวหนัง ขอบเขตชัดเจน ไม่เจ็บ แพทย์ควรให้การวินิจฉัยแยกโรคไว้ด้วย การรักษาอย่างเหมาะสมและทันต่วงที่จะช่วยลดการติดเชื้อลุกลามและภาวะแทรกซ้อนได้

กิตติกรรมประกาศ

ขอบพระคุณ พญ.เทติยา วิริไฟ และนพ.สิทธิโชค เล่าหะวิสัย กุมารศัลยแพทย์ โรงพยาบาลขอนแก่น สำหรับข้อมูลทางศัลยกรรม ที่ช่วยแนะนำการแก้ไขให้รายงานผู้ป่วยฉบับนี้สมบูรณ์ยิ่งขึ้น

ตารางที่ 1 ทบทวนวรรณกรรมรายงานผู้ป่วยที่ติดเชื้อ basidiobolomycosis

ปีที่ตีพิมพ์/ ผู้ประพันธ์	ชื่อเรื่อง	ประเทศ	ผู้เข้าร่วม	การรักษา	การวินิจฉัย	เชื้อที่พบ
1997 สุจิตรา วีรวรรณ ²⁰	โรคติดเชื้อ basidiobolus ชนิด แพร่กระจาย	ประเทศ ไทย	เด็กชาย 3 ปี (N=1)	Co- trimoxazole 8 มิลลิกรัมต่อ น้ำหนักตัว 1 กิโลกรัมต่อวัน 19 สัปดาห์	ชิ้นเนื้อจากการ เพาะเชื้อ	<i>Basidiobolus ranarum</i>
2020 Hung TY ⁹	การติดเชื้อที่ผิวหนัง และเนื้อเยื่อใต้ผิวหนัง จากเชื้อ Basidiobolus ในประเทศออสเตรเลีย	ออสเตรเลีย	เด็กหญิง 4 ปี (N=1)	ผ่าตัดร่วมกับ ใช้ยาไวรัสโคนา โซล และไอท ร่าโคนาโซล 6 สัปดาห์	ชิ้นเนื้อทาง พยาธิวิทยา	<i>Basidiobolus spp.</i>
2008 Singh R ²	รายงานผู้ป่วย Basidiobolomycosis:	อินเดีย	เด็กหญิง 11 ปี (N=1)	ไม่ได้รับการ รักษาและไม่ได้ ติดตามการ รักษา	ชิ้นเนื้อทาง พยาธิวิทยา	<i>Basidiobolus ranarum</i>

ปีที่ตีพิมพ์/ ผู้ประพันธ์	ชื่อเรื่อง	ประเทศ	ผู้เข้าร่วม	การรักษา	การวินิจฉัย	เชื้อที่พบ
2010 Anand M ¹⁰	รายงานผู้ป่วยติดเชื้อรา <i>Basidiobolus ranarum</i>	อินเดีย	เด็กชาย 3 ปี (N=1)	โพแทสเซียม ไอโอไดด์ 40 มิลลิกรัม/ กิโลกรัม/วัน 1 1 สัปดาห์ จากนั้น ไอทรา โคนาโซล 6 เดือน	ขึ้นเนื้อจากการ เพาะเชื้อ	<i>Basidiobolus ranarum</i>
2011 Jarie A ¹⁶	Basidiobolomycosis, รายงานกลุ่มผู้ป่วย	ซาอุดีอารา เบีย	ผู้ป่วย 5 คน มา ด้วยไข้ (N=5)	ผู้ป่วยรายที่ 1 ผ่าตัดและให้ ไอทราโคนา โซลและแอม โฟเทอริซินบี ผู้ป่วยรายที่ 2,3,4 แอมโฟเท อริซินบี และ ไอทราโคนา โซล ผู้ป่วยรายที่ 5 แอมโฟเท อริซินบี และ โวริโคนาโซล	ขึ้นเนื้อจากการ เพาะเชื้อ	<i>Basidiobolus ranarum</i>
2014 Albaradi B ¹¹	การรักษาเชื้อรา basidiobolomycosis ในช่องท้องด้วยยาโวริ โคนาโซลโดยไม่ใช้การ ผ่าตัด	ซาอุดีอารา เบีย	เด็กชาย 11 ปี (N=1)	โวริโคนาโซล 1 ปี	ขึ้นเนื้อทาง พยาธิวิทยา	<i>Basidiobolus ranarum</i>

ปีที่ตีพิมพ์/ ผู้ประพันธ์	ชื่อเรื่อง	ประเทศ	ผู้เข้าร่วม	การรักษา	การวินิจฉัย	เชื้อที่พบ
2014 Zabolinejad N ³	การติดเชื้อราบริเวณ ลำไส้ใหญ่จากเชื้อ basidiobolomycosis	อิหร่าน	เด็กชาย 3 ปี (N=1)	ผ่าตัดและใช้ยา โพซาโคนา โชนล 200 มิลลิกรัมทุก 12 ชั่วโมง ระยะเวลา 3 เดือน จากนั้น ไอทราโคนา โชนล 1 ปี	ชิ้นเนื้อจากการ เพาะเชื้อ	<i>Basidiobolus ranarum</i>
2018 Brun L ¹⁴	การติดเชื้อชั้นใต้ ผิวหนังเนื่องจากโรค basidiobolomycosis	แอฟริกา	เด็กหญิง 3 ปี เด็กชาย 3 ปี ผู้ชาย 43 ปี (N=3)	ไม่ได้รับการ รักษาด้วยยาฆ่า เชื้อรา และ ไม่ได้ติดตาม การรักษา	ชิ้นเนื้อทาง พยาธิวิทยา	<i>Basidiobolus spp.</i>
2017 Saka B ¹⁵	การติดเชื้อ basidiobolomycosis เลียนแบบการติดเชื้อ mycobacterium	แอฟริกา	เด็กชาย 5 ปี (N=1)	คีโตโคนาโซล 10 มิลลิกรัม/ กิโลกรัม/วัน ระยะเวลา 8 สัปดาห์	ชิ้นเนื้อทาง พยาธิวิทยา	<i>Basidiobolus spp.</i>

เอกสารอ้างอิง

1. Ribes JA, Vanover-Sams CL, Baker DJ. Zygomycetes in human disease. Clin Microbiol Rev. 2000;13:236–301
2. Singh R, Xess I, Ramavat AS, Arora R. Basidiobolomycosis: A rare case report. Indian J Med Microbiol. 2008;26:265–7.
3. Zabolinejad N, Naseri A, Davoudi Y, Joudi M, Aelami MH. Colonic basidiobolomycosis in a child: A report of a culture-proven case. Int J Infect Dis IJID Off Publ Int Soc Infect Dis. 2014;22:41–3
4. Geramizadeh B, Heidari M, Shekarkhar G. Gastrointestinal basidiobolomycosis, a rare and under-diagnosed fungal infection in immunocompetent hosts: A review article. Iran J Med Sci. 2015;40:90–7.
5. Al-Shanafey S, AlRobean F, Bin Hussain I. Surgical management of gastrointestinal basidiobolomycosis in pediatric patients. J Pediatr Surg. 2012;47:949–51
6. Mishra P, Kshirsagar PR, Nilegaonkar SS, Singh SK. Statistical optimization of medium components for production of extracellular chitinase by *Basidiobolus ranarum*: A novel biocontrol agent against plant pathogenic fungi. J Basic Microbiol. 2012;52:539–48.
7. Wasim Yusuf N, Assaf HM, Rotowa NA. Invasive gastrointestinal *Basidiobolus ranarum* infection in an immunocompetent child. Pediatr Infect Dis J. 2003;22:281–2.
8. Jarie AA, Al-Mohsen I, Jumaah SA, Hazmi MA, Zamil FA, Zahrani MA, et al. Pediatric gastrointestinal basidiobolomycosis. Pediatr Infect Dis J. 2003;22:1007.
9. Hung TY, Taylor B, Lim A, Baird R, Francis JR, Lynar S. Skin and soft tissue infection caused by *Basidiobolus* spp. in Australia. ID Cases. 2020;20:e00731.
10. Anand M, Deshmukh SD, Pande DP, Naik S, Ghadage DP. Subcutaneous zygomycosis due to *Basidiobolus ranarum*: A case report from Maharashtra, India. J Trop Med. 2010;950390.
11. Albaradi BA, Babiker AMI, Al-Qahtani HS. Successful treatment of gastrointestinal basidiobolomycosis with voriconazole without surgical intervention. J Trop Pediatr. 2014;60:476–9.
12. AL juaid A, Al-Rezqi A, Almansouri W, Maghrabi H, Satti M. Pediatric gastrointestinal basidiobolomycosis: Case report and review of literature. Saudi J Med Med Sci. 2017;5:167–71.
13. El-Shabrawi MH, Kamal NM, Kaerger K, Voigt K. Diagnosis of gastrointestinal basidiobolomycosis: A mini-review. Mycoses. 2014;57:138–43.

14. Brun LVC, Roux JJ, Sopoh GE, Aguiar J, Eddyani M, Meyers WM, et al. Subcutaneous granulomatous inflammation due to basidiobolomycosis: Case reports of 3 patients in Buruli Ulcer Endemic Areas in Benin. *Case Rep Pathol.* 2018;1351694.
15. Saka B, Gnassingbe W, Mahamadou G, Akakpo S, Teclessou J, Abilogun-Chokki A, et al. Basidiobolomycosis simulating a *Mycobacterium ulcerans* infection in a Togolese rural child. *Case Rep Dermatol Med.* 2017;6905783.
16. Al Jarie A, Al Azraki T, Al Mohsen I, Al Jumaah S, Almutawa A, Mohd Fahim Y, et al. Basidiobolomycosis: Case series. *J Mycol Médicale.* 2011;21:37–45.
17. Vikram HR, Smilack JD, Leighton JA, Crowell MD, De Petris G. Emergence of gastrointestinal basidiobolomycosis in the United States, with a review of worldwide cases. *Clin Infect Dis.* 2012;54:1685-91.
18. Geramizadeh B, Heidari M, shekarkhar G. Gastrointestinal basidiobolomycosis, a rare and under-diagnosed fungal infection in immunocompetent hosts: A review article. *Iran J Med Sci.* 2015;40:90–7.
19. Arora P, Sardana K, Bansal S, Garg VK, Rao S. Entomophthoromycosis (basidiobolomycosis) presenting with "saxophone" penis and responding to potassium iodide. *Indian J Dermatol Venereol Leprol.* 2015;81:616-18.
20. วีรวรรณ สุจิตรา. โรคติดเชื้อ basidiobolus ชนิดแพร่กระจาย. วารสารกุมารเวชศาสตร์ 2540 (ตุลาคม-ธันวาคม 2540): 292-296.