

Introdução: Relato de caso de uma pansinusite com proptose do olho direito causada por *Aspergillus flavus* (*A. flavus*) em paciente masculino, 17 anos de idade, imunodeprimido com leucemia aguda bifenotípica (LAB) (linhagens mielóide e linfóide) sem resposta a terapia agressiva. **Metodologia:** Análise do caso e revisão da literatura relacionada à sinusite por *Aspergillus* sp., à LAB e à sinusite em pacientes imunodeprimidos. **Resultados:** O paciente estava recebendo para tratamento da LAB: cytarabine, idarubicin e etoposide (7+3+5) seguidas de alta dose de cytarabine. Depois de uma remissão completa de curta duração, foi submetido 2º curso de indução com metoxantrone e etoposide sem resposta. O paciente estava sendo tratado para febrícula neutropênica, quando desenvolveu febre (39°C) e cefaléia. Tomografia de crânio mostrava opacificação dos seios maxilar, etmoidal, esfenoidal e frontal direitos. Isolou *A. flavus* do material drenado do seio maxilar direito. O diagnóstico também foi confirmado por exames sorológicos específicos para *A. flavus*. O paciente já estava sendo tratado com anfotericina B, na dose de 1 mg/kg/dia, 2 meses antes do diagnóstico da sinusite por *A. flavus*, devido a candidemia. Depois do diagnóstico da sinusite, foi associado itraconazol 200 mg/dia, sendo indicada a rinosinusotomia; porém, mesmo com o tratamento o paciente evoluiu para óbito. **Conclusões:** a sinusite por *Aspergillus* sp. em pacientes neutropênicos, é uma doença invasiva fulminante frequentemente fatal; logo, um diagnóstico precoce é fundamental, aumentando a eficácia do tratamento que consiste de remoção cirúrgica do tecido danificado associado com terapia antifúngica. Apesar do tratamento, a morte é comum devido ao longo período do início da doença até o início da terapia. O *A. flavus* é o principal agente na sinusite fúngica descrito em cerca de 65% (11/17) de todos os casos na literatura.