

## CASO CLÍNICO

# Leishmaniasis mucocutánea: una enfermedad importada con repercusión en ORL

Myriam González<sup>a,\*</sup>, Fernando Benito<sup>a</sup>, Laura García<sup>a</sup> y Alicia Iglesias<sup>b</sup>

<sup>a</sup>Servicio de ORL y PCF, Hospital Clínico Universitario de Salamanca, España

<sup>b</sup>Servicio de Enfermedades Infecciosas y Parasitarias, Hospital Clínico Universitario de Salamanca, España

Recibido el 17 de septiembre de 2008; aceptado el 28 de enero de 2009

Disponible en Internet el 24 de junio de 2009

### PALABRAS CLAVE

Leishmaniasis mucocutánea;  
*Leishmania braziliensis*;  
Nariz;  
Septum

### KEYWORDS

Mucocutaneous Leishmaniasis;  
*Leishmania braziliensis*;  
Nose;  
Nasal septum

### Resumen

Las leishmaniasis son un conjunto de afecciones causadas por protozoos del género *Leishmania* del que existen varias especies patógenas. Se transmiten por la picadura de mosquitos del género *Phlebotomus*.

La *Leishmania braziliensis* es endémica en zonas de América Latina y es la responsable de la leishmaniasis mucocutánea que presentamos<sup>1,2</sup>.

La lesión primaria aparece en extremidades en forma de una ulceración que se repara con cicatriz. En una parte de los casos no tratados aparece una fase tardía que afecta al área otorrinolaringológica con lesiones destructivas crónicas y mutilantes de difícil tratamiento.

© 2008 Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

### Mucocutaneous Leishmaniasis: An imported illness with ENT repercussions

### Abstract

We report a case of mucocutaneous Leishmaniasis, an uncommon illness in our area. Leishmaniasis covers a group of diseases caused by protozoa of the genus *Leishmania* with several pathogenic species transmitted by *Phlebotomus* mosquitoes. *Leishmania braziliensis* is endemic in parts of South America and is responsible for the mucocutaneous Leishmaniasis reported here.

The initial lesion is cutaneous and appears as an ulcer on arms or legs, leaving a scar. In some untreated cases, a late phase may affect the ENT area with hard to treat chronic destructive and mutilating lesions.

© 2008 Elsevier España, S.L. All rights reserved.

\*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: myriort@hotmail.com (M. González).

## Caso clínico

Varón de 36 años que acude a consulta de ORL por presentar tumefacción de la pirámide nasal, obstrucción nasal progresiva de tres meses de evolución, rinorrea purulenta y epístaxis de repetición por ambas fosas nasales junto con costras de forma habitual. No se acompaña de fiebre ni de otros síntomas generales.

Reconocía seropositividad a *Trypanosoma cruzi* tras una hemodonación y presentaba una lesión cutánea identificada como «espundia» en el antebrazo derecho (fig. 1). Como dato epidemiológico, el paciente había trabajado como empleado forestal en su país, Bolivia.

La exploración otorinolaringológica mostraba una lesión eritematocostrosa en el dorso nasal, que afectaba sobre todo a la punta y la región columelar (fig. 1). Mediante rinoscopia anterior se apreció una perforación septal con lesión ulcerada que afectaba a la zona posterior de la perforación, el suelo de la fosa y el techo (fig. 2).

Ante la sospecha, por los datos epidemiológicos y sus antecedentes personales, de que se trataba de una manifestación nasosinusal de una enfermedad infecciosa específica, se solicitó la colaboración del Servicio de Enfermedades Infecciosas. Ante la procedencia geográfica y la presencia de las lesiones cutánea y mucosa, se planteó el diagnóstico de presunción de leishmaniasis mucocutánea.

Para su confirmación se realizó una biopsia de la mucosa nasal, a nivel del borde posterior de la perforación septal, evidenciándose un tejido de granulación úlcero-necrotizante sin inclusiones intramacrofágicas. El cultivo de la muestra

fue positivo para *Leishmania* sp., con reacción en cadena de la polimerasa (PCR) positiva para *Leishmania braziliensis*.

Las serologías frente al virus de la inmunodeficiencia humana (VIH), virus de la hepatitis B (VHB), virus de la hepatitis C (VHC) y lúes fueron negativas. Fue positiva frente a *T. cruzi* (análisis inmunoenzimático [ELISA]-IgG+, inmunofluorescencia indirecta [IFI]-IgG (1/160)). La serología (IFI) para *Leishmania* sp. fue positiva a 1/160.

La TC nasosinusal reveló una ocupación del seno maxilar izquierdo con destrucción parcial del septum (fig. 2). La ecografía abdominal, el electrocardiograma, la ecocardiografía, el tránsito gastroesofágico y el enema opaco no mostraron alteraciones chagásicas.

Ante la confirmación de leishmaniasis mucocutánea y coinfección por *T. cruzi* en un período clínico indeterminado, se administró antimonio de meglumina parenteral (20 mg/kg/día) 28 días y benznidazol (5 mg/kg/día en dos dosis) 10 días. Al término del tratamiento se apreció una mejoría clínica, realizándose al año una nueva biopsia de la mucosa nasal con resultado histopatológico normal y negativización del cultivo y de la PCR.

## Discusión

Las leishmaniasis son un conjunto de enfermedades muy dispares entre sí, producidas por distintas especies patógenas de un protozoo del género *Leishmania*. Hay tres formas básicas de presentación: cutánea o Botón de Oriente, mucocutánea o espundia, y visceral o Kala Azar,



Figura 1 Lesión cutánea (izquierda) y lesión columelar (derecha).

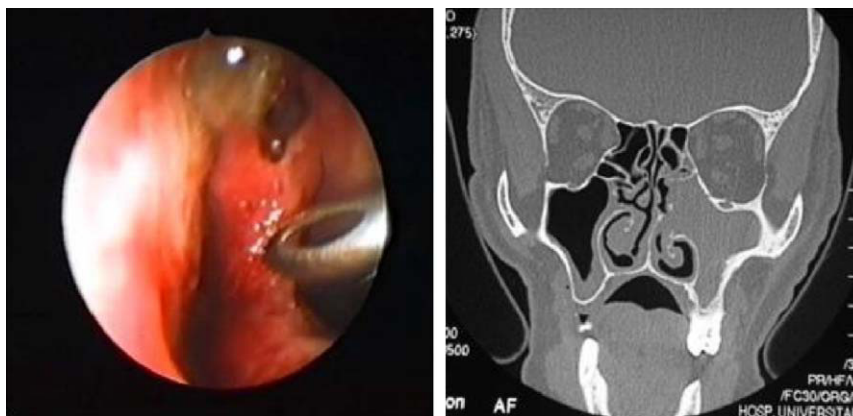


Figura 2 Lesión septum nasal (izquierda) e imagen de TAC (derecha).

dependiendo del género de *Leishmania* causante y del tipo de respuesta inmune establecida<sup>1,3</sup>. Tiene interés pronóstico el diagnóstico de la especie.

La especie *L. braziliensis* puede producir la forma cutánea y la mucocutánea, constituyendo un gran problema sanitario en áreas de Centroamérica y Sudamérica y, sobre todo, en zonas de bosque<sup>1,2</sup>. En nuestro caso, el paciente había trabajado como empleado forestal.

El reservorio habitual son los roedores y los perros. El vector es la hembra del insecto *Phlebotomus* y el huésped son las células del sistema reticuloendotelial. La *Leishmania* presenta un flagelo en el insecto (forma promastigote) y carece de él al parasitar los macrófagos de los huéspedes vertebrados (forma amastigote).

El insecto ingurgita sangre de un animal parasitado ingiriendo macrófagos con amastigotes que se liberan para multiplicarse en el tubo digestivo adquiriendo la forma de promastigotes infectivos<sup>3-5</sup>.

La presentación clínica de las lesiones cutáneas es variable. Tras la picadura del insecto aparece una pequeña pápula indurada, sin eritema ni descamación. Dos semanas después aparece una ulceración con bordes sobreelevados y costra central. Ocasionalmente pueden aparecer linfadenopatías en el área de drenaje de la lesión. En los meses siguientes aparece una cicatriz hiperpigmentada con líneas radiadas centripetas, semejante a la de nuestro paciente.

Sin tratamiento, casi en el 15% de los casos evoluciona a leishmaniasis mucocutánea, con destrucción de los cartílagos nasales y paladar blando, ocasionando mutilaciones extensas con afectación de los tejidos subyacentes<sup>6</sup>.

Comienza con un enrojecimiento de la mucosa del tercio distal del tabique nasal. Se inicia después un proceso de ulceración de dicha mucosa con elevación e induración de los bordes de la lesión y, meses después, con destrucción del soporte cartilaginoso de la nariz con perforación del tercio distal del septum, fase en la que se encontraba nuestro paciente. Puede aparecer deformación y ensanchamiento nasal con pérdida del soporte cartilaginoso de las

aletas nasales y caída de la punta, dando lugar a la «nariz de tapir».

Si el compromiso es de la mucosa de la cavidad oral, aparece pérdida de la úvula, afectación del velo del paladar y un aspecto de empedrado de la mucosa del paladar duro. La afectación puede extenderse a la laringe, la faringe y la tráquea superior<sup>6,2</sup>.

Para el diagnóstico de sospecha de estas enfermedades son fundamentales la exploración exhaustiva de las lesiones y los antecedentes epidemiológicos de viajes o procedencia de otros países. Para la confirmación diagnóstica es necesario detectar en la biopsia amastigotes intramacrofágicos con cultivo de *Leishmania* sp. La PCR permite el diagnóstico de la especie.

Debido al incremento de las migraciones poblacionales desde países con enfermedades infecciosas endémicas poco prevalentes en nuestro país, es necesario que el especialista conozca ésta y otras afecciones como paracoccidiodomycosis, lepra, histoplasmosis, tuberculosis y treponematosis, que deben ser incluidas en el diagnóstico diferencial<sup>7</sup>.

## Bibliografía

1. Louis PJ, Lipovsky MM, Hoepelman AI, Hardijk GJ, Huizing EH. *Leishmania braziliensis* presenting as a granulomatous lesion of the nasal septum mucosa. *J Laryngol Oto*. 1997;111:973-5.
2. Tomson N, Symonds RP, Moir AA, Kendal CH, Wiselka MJ. New world leishmaniasis from Spain. *Postgrad Med J*. 2002;78:757-8.
3. Martínez P, Arias G, Sanz JJ, Cuchi A. Cutaneous leishmaniasis: Report of a case. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2001;52:710-2.
4. Shareef MM, Trotter MI, Cullen RJ. Leishmaniasis of the nasal cavity: A case report. *J Laryngol Otol*. 2005;119:1015-7.
5. Galioto P, Fornaro V. A case of mucocutaneous leishmaniasis. *Ear Nose Throat J*. 2002;81:46-8.
6. Hernández CA. Natural history of cutaneous and mucocutaneous leishmaniasis. *Biomedica*. 2006;26:10-2.
7. Weller PF, Durand ML, Pilch BZ. Case 4-2005. A 35-year-old man with nasal congestion, swelling, and pain. *N Engl J Med*. 2005;352:609-15.