



## Original

### Un nuevo caso clínico de rinosporidiosis en Chile

Pedro Brevis<sup>a,\*</sup>, Erik Morales<sup>b</sup>, Juan C. Bravo<sup>c</sup>, Valeria Monasterio<sup>b</sup>, Belarmino Mánques<sup>b</sup>, Luis Zaror<sup>d</sup>, Paulina Abaca<sup>a</sup> y Lorena Toloza<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Departamento de Microbiología, Universidad de Talca, Chile

<sup>b</sup> Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Regional de Talca, Chile

<sup>c</sup> Servicio de Otorrinolaringología, Hospital de Talca, Chile

<sup>d</sup> Instituto de Microbiología, Universidad Austral de Chile, Chile

#### INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

##### Historia del artículo:

Recibido el 23 de diciembre de 2009

Aceptado el 1 de octubre de 2010

On-line el 13 de octubre de 2010

##### Palabras clave:

Rinosporidiosis

*Rhinosporidium seeberi*

#### RESUMEN

**Antecedentes:** La rinosporidiosis es una afección no contagiosa, granulomatosa crónica con desarrollo de pólipos, fundamentalmente nasales, altamente vascularizados que sangran con facilidad.

**Objetivos:** La exposición del caso de un joven de 14 años de edad que presentaba obstrucción y lesión en la fosa nasal derecha de forma polipoidea y de aspecto aframbuesado.

**Métodos:** Se realizó una resección quirúrgica amplia de la base de la lesión y posteriormente se efectuó el procesamiento histopatológico estándar y el análisis microscópico con tinción de hematoxilina-eosina y Grocott.

**Resultados y conclusiones:** El informe histopatológico indicó que el pólipo inflamatorio crónico era compatible con rinosporidiosis.

© 2009 Revista Iberoamericana de Micología. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

### A new case of rhinosporidiosis in Chile

#### ABSTRACT

**Background:** Rhinosporidiosis is a chronic, granulomatous, and non-contagious infection, in which highly vascularized polyps (mainly present in the nasal cavity) appear. These polyps usually bleed easily.

**Aims:** To present the case of a 14 year-old male suffering from an obstruction and injury of the right nostril due to a polypoid shaped-lesion with a raspberry-like appearance.

**Methods:** A wide surgery resection of the base of the lesion was performed, as well as a standard histopathology procedure, including microscopic analysis with haematoxylin-eosin and Grocott staining.

**Results and conclusions:** The histopathology report indicated that the chronic inflammatory polyp was compatible with rhinosporidiosis.

© 2009 Revista Iberoamericana de Micología. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

*Rhinosporidium seeberi* es un microorganismo que no se puede cultivar *in vitro* y puede infectar la superficie de las mucosas de humanos y animales. Fue descubierto por Seeber en Argentina en 1900<sup>31</sup>. Se han descrito infecciones por *R. seeberi* en casi todo el mundo, principalmente en India y Pakistán, donde se observa el 88% de los casos, también en Sri Lanka, varios países árabes, Brasil, Argentina, Paraguay, EE.UU. y Europa<sup>4,16,28</sup>.

La rinosporidiosis es una afección no contagiosa, granulomatosa crónica con desarrollo de pólipos, con más frecuencia nasales pero también en conjuntiva, faringe y zona genital. Se observa una descarga nasal, con obstrucción e irritación y pólipos friables e

irrigados, con aspecto de fresas, sésiles o pedunculados. Estos pólipos se ubican con preferencia en el septum nasal provocando una obstrucción respiratoria, o en el vestíbulo, con un estroma conectivo fibromixomatoso que contiene esporangios en diversos estados de desarrollo. Ocasionalmente hay eosinófilos y células gigantes. También se observa un infiltrado mononuclear de células plasmáticas, linfocitos e histiocitos y neutrófilos. El pólipo está altamente vascularizado y sangra con facilidad<sup>1,2</sup>.

*R. seeberi* se observa en el ser humano y en animales, tales como los équidos, bóvidos, cánidos y aves acuáticas, entre otros. Se sostiene que la infección se adquiere principalmente por contacto directo con aguas estancadas<sup>10</sup>, a través de la mucosa nasal (70% de los casos) u ocular (15%)<sup>18,32</sup>.

En áreas secas y de climas cálidos la forma ocular es la presentación más frecuente de rinosporidiosis y es generalmente

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: pbrevis@utalca.cl (P. Brevis).

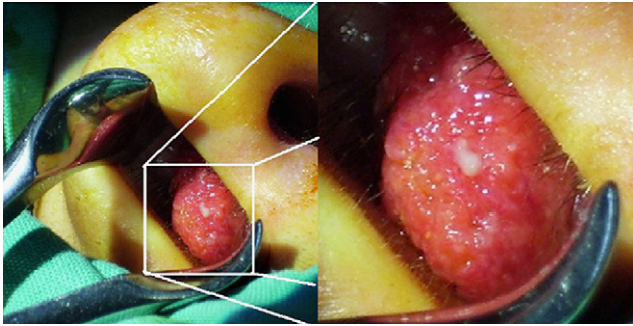


Figura 1. Pólipo nasal producido por *Rhinosporidium seeberi*.

unilateral. Típicamente hay lesión conjuntival móvil, granular, rosada a roja, sésil o pedunculada, adherida a los bordes de la conjuntiva. Se ha informado de casos raros de distribución sistémica en hígado, bazo, pulmón y cerebro<sup>26,27</sup>. No hay transmisión interhumana y no se sabe con certeza como se transmite, observándose una mayor incidencia en hombres que en mujeres<sup>5,25</sup>.

El diagnóstico es sencillo, pero requiere un diagnóstico diferencial con mucocelos, hemangiomas, condilomas y neoplasmas, entre otros<sup>11,19</sup>.

En Chile, son pocos los casos descritos: en el año 1967 en Valparaíso, se publicaron los primeros siete casos de pólipos nasales producidos por *R. seeberi*<sup>8</sup>. En el año 1988, se comunicaron dos nuevos casos de lesiones poliposas de mucosa nasal en dos hombres de 35 y 62 años<sup>24</sup>. En el año 1989, en Chillán, se describió el único caso conocido en Chile en un équido<sup>9</sup>. A continuación, se presenta un caso clínico de rinosporidiosis detectado en la ciudad de Talca, Chile.

### Caso clínico

El paciente era un joven de 14 años de edad, habitante de un sector rural de la provincia de Talca. La madre informa de que viven a un costado de una laguna donde el joven ayuda a su padre en la crianza de ranas y, además, dicho lugar es utilizado por animales del sector para hidratarse. En abril de 2009, el paciente consulta en el Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Base de Talca, por presentar dolor y obstrucción nasal de tres meses de evolución. Al examen físico se observó la presencia de una lesión en la fosa nasal derecha, de forma polipoidea y aspecto aframbuesado en la parte anterior del septo nasal (fig. 1). Dicha lesión fue reseca y la pieza quirúrgica fue remitida a la unidad de anatomía patológica. Para su fijación se utilizó formalina al 10% neutralizada. Se realizó procesamiento histopatológico estándar y análisis microscópico con tinciones de hematoxilina-eosina y de Grocott, que arrojaron resultados concluyentes. El informe histopatológico describía la muestra como un pólipo inflamatorio crónico compatible con rinosporidiosis. Los cortes histológicos teñidos con hematoxilina-eosina evidenciaron las típicas esferas de varios tamaños (50 a 150  $\mu\text{m}$  de diámetro), como se observan en las figuras 2 y 3. El examen histológico mostró una reacción inflamatoria crónica en submucosa y dermis con presencia de linfocitos, plasmocitos y tejido granular, células epitelioides, neutrófilos y células gigantes tipo cuerpo extraño.

### Discusión

La rinosporidiosis es una enfermedad con buen pronóstico, aún cuando puede recidivar. Hasta la fecha no se ha logrado el aislamiento y el cultivo *in vitro* de *R. seeberi*<sup>22</sup>, y la serología no tiene

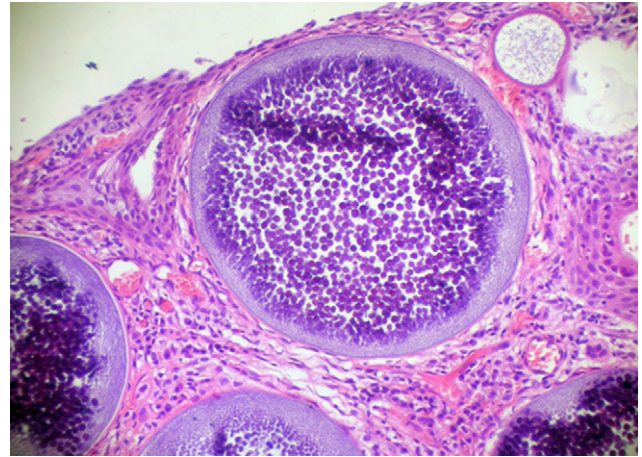


Figura 2. Esporangios de *Rhinosporidium seeberi* con endosporas coloreadas con hematoxilina-eosina, 100  $\times$ .

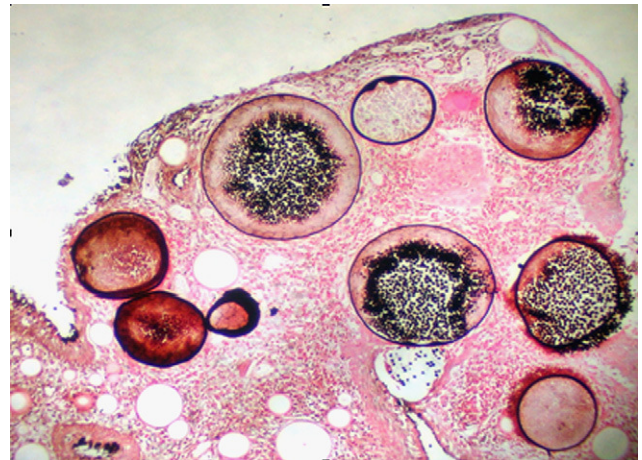


Figura 3. Esporangios de *Rhinosporidium seeberi* con endosporas coloreadas con Grocott, 40  $\times$ .

valor diagnóstico<sup>3,16</sup>. Mendoza et al<sup>21</sup> estudiaron el ciclo de *R. seeberi*. Este se inicia con la liberación de las endosporas de los esporangios maduros en el tejido del huésped. Una vez implantadas, las endosporas aumentan su tamaño progresivamente (formas juvenil, intermedia y madura). Los futuros esporangios liberarán las endosporas de su interior y, de esa manera, se reiniciará el ciclo *in vivo*. La estimulación de los esporangios en medio acuoso estaría relacionada con las condiciones húmedas del ambiente<sup>21</sup>. Herr et al<sup>15</sup> investigaron por microscopía electrónica la inmunolocalización de los antígenos de *R. seeberi*, encontrando que la detección del antígeno ocurre solo en la etapa final de la maduración del esporangio. Por estudios de biología molecular basados en la subunidad pequeña 18S del ADN ribosómico se ha determinado que esta especie pertenece a la clase Mezomycetozoa<sup>14</sup>.

Característicamente produce un enfermedad granulomatosa crónica, con desarrollo de pólipos pediculados o sésiles, principalmente nasales (70%), periorbitales, en el paladar, o más raramente en vagina o ano. Dichos pólipos son de superficie rugosa, presentan puntos blancos, se encuentran muy irrigados y sangran fácilmente<sup>2</sup>. En las lesiones se producen esporangios, inicialmente juveniles de 6  $\mu\text{m}$  de diámetro pudiendo llegar a 300  $\mu\text{m}$  en la etapa madura, que contienen en su interior hasta 12.000 endosporas que se diseminan una vez que los esporangios maduros se rompen<sup>15</sup>.

Arseculeratne et al<sup>3</sup> estudiaron la producción de anticuerpos contra *R. seeberi*, encontrando que si bien estos anticuerpos se producen no son protectores, ya que detectaron títulos altos en pacientes con recidivas o con rinosporidiosis de larga duración.

Arunachalam et al<sup>5</sup> evaluaron a 50 pacientes con rinosporidiosis encontrando una relación entre hombres y mujeres de 6:1. La gran mayoría (98%) tenía antecedentes de baños en lagunas y solo el 16% presentaron localizaciones extranasales.

Son numerosas las publicaciones de casos de pólipos nasales producidos por *R. seeberi*<sup>10,16,20,27</sup>. Otras localizaciones de rinosporidiosis son la uretral<sup>6,13,29,30</sup> y la conjuntival<sup>23,28</sup>. También han sido reportados algunos casos con localización en muslos o piernas<sup>12,27</sup>. Se han observado episodios con lesiones en más de una localización<sup>11,12</sup>. Arseculeratne et al describieron por primera vez la presencia de linfadenitis en 27 casos de rinosporidiosis<sup>1</sup>.

La rinosporidiosis diseminada es una presentación clínica inusual de esta enfermedad. Sin embargo, se han descrito lesiones en pulmón en un paciente con pólipos nasales en tratamiento con dapsona<sup>26</sup>. De acuerdo a Venkateswaran et al<sup>33</sup>, la dapsona es efectiva al inhibir la división del microorganismo, acelerando su degeneración y evitando su propagación y recurrencia.

Nuestro paciente padeció un curso crónico de la enfermedad al presentarse un cuadro clínico de más de un año de evolución y de lento desarrollo. Es importante resaltar la relación del paciente con el sector agrícola, además de que realizará diversas actividades en la laguna cercana a su vivienda, lugar que se perfila como la más probable fuente de contagio<sup>10</sup>.

La resección quirúrgica del pólipo es el tratamiento adecuado<sup>10,16</sup>. La cauterización de la lesión o la crioterapia ayudan a prevenir las recurrencias<sup>7</sup>. En nuestro caso, el tratamiento consistió en la extirpación quirúrgica del pólipo con resección amplia de la base de la lesión sin electrocauterización del lecho quirúrgico. No se apreció una recidiva de la lesión en el lado intervenido, pero se descubrió una nueva lesión en la fosa nasal contraria que podría deberse a una inoculación con el instrumental quirúrgico contaminado al explorar la fosa nasal sana, situación sugerida previamente por Karunaratne<sup>17</sup> pero también pudo producirse una autoinoculación.

Finalmente, se recomienda tener una especial precaución en la observación de pólipos de diversas localizaciones para no pasar por alto un diagnóstico que es fácil de realizar.

## Bibliografía

- Arseculeratne SN, Panabokke RG, Atapattu DN. Lymphadenitis, trans-epidermal elimination and unusual histopathology in human rinosporidiosis. *Mycopathologia*. 2001;153:57-69.
- Arseculeratne SN. Recent advances in rinosporidiosis and *Rhinosporidium seeberi* Indian. *J Med Microbiol*. 2002;20:119-31.
- Arseculeratne SN, Kumarasiri PVR, Rajapakse RPVJ, Perera NAND, Arseculeratne G, Atapattu DN. Anti-rinosporidial antibody levels in patients with rinosporidiosis and in asymptomatic persons, in Sri Lanka. *Mycopathologia*. 2004;158:157-64.
- Arseculeratne SN. Rinosporidiosis: What is the cause? *Curr Opin Infect Dis*. 2005;18:113-8.
- Arunachalam PS, Iyer PS, Kurian CA. Clinico-epidemiological study of rinosporidiosis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2002;129:22. P056.
- Azad NS, Ahmad Z, Kayani N. Rinosporidiosis presenting as an urethral polyp. *J Coll Physicians Sur Pak*. 2008;18:314-5.
- Borges Crosara PF, Goncalves C, Antunes V, Barbosa F, Goncalves H, Santos R. Nasal rinosporidiosis: Differential diagnosis of fungal sinusitis and inverted papilloma. *Int Arch Otorhinolaryngol*. 2009;13:93-5.
- De la Rosa G. Hallazgo de 7 casos de rinosporidiosis. *Rev Méd Chile*. 1967;95:214-5.
- Farias C, Cubillos V, Hebel P. Rinosporidiosis equina, primera comunicación en Chile. *Pat Anim*. 1989;3:43-5.
- Franca Jr GV, Gomes CC, Sakano E, Altamani AM, Shimizu LT. Nasal rinosporidiosis in children. *J Pediatr (Rio J)*. 1994;70:299-301.
- Ghorpade A, Ramanan C. Verrucoid cutaneous rinosporidiosis. *J Eur Acad Dermatol Venereol*. 1998;10:269-70.
- Ghorpade A. Giant cutaneous rinosporidiosis. *J Eur Acad Dermatol Venereol*. 2006;20:88-9.
- Hanchanale VS, Rao AR, Joseph G. A case of urethral rinosporidiosis. *Urology*. 2005;66:1106-7.
- Herr RA, Ajello L, Taylor JW, Arseculeratne SN, Mendoza L. Phylogenetic analysis of *Rhinosporidium seeberi*'s 18S small-subunit ribosomal DNA groups This Pathogen among Members of the Protocistan Mesomycetozoa Clade. *J Clin Microbiol*. 1999;37:2750-4.
- Herr RA, Mendoza L, Arseculeratne SN, Ajello L. Immunolocalization of an endogenous antigenic material of *Rhinosporidium seeberi* expressed only during mature sporangial development. *FEMS Immunol Med Microbiol*. 1999;23:205-12.
- Hussein MR, Rashad UM. Rinosporidiosis in Egypt: A case report and review of literature. *Mycopathologia*. 2005;159:205-7.
- Karunaratne WAE. *Rhinosporidium* in man. London: The Athlone Press; 1964.
- Leeming G, Smith KC, Bestbier ME, Benelet A, Kipar A. Equine rinosporidiosis in United Kingdom. *Emerg Infect Dis*. 2007;13:1377-9.
- Loh LS, Chong SM, Pang YT, Soh K. Rinosporidiosis: Differential diagnosis of a large nasal mass. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2001;124:121-2.
- Lörz M, Heine M. Rinosporidiose. Eine seltene Ursache für naselbluten. *HNO*. 2001;49:842-4.
- Mendoza L, Herr RA, Arseculeratne SN, Ajello L. In vitro studies on the mechanisms of endospore release by *Rhinosporidium seeberi*. *Mycopathologia*. 1999;148:9-15.
- Mendoza L, Vilela R, Rosa P, Fernandes A. *Lacazia loboi* and *Rhinosporidium seeberi*: a genomic perspective. *Rev Iberoam Micol*. 2005;22:213-6.
- Nerurkar NK, Bradoo RA, Joshi AA, Shah J, Tandon S. Lacrimal sac rinosporidiosis. A case report. *Am J Otolaryngol*. 2004;25:423-5.
- Oddo D, Lobos T. Micosis inhabituales en Chile: Comunicación de 10 casos. *Rev Méd Chile*. 1989;116:1135-42.
- Pang KRP, Wu JJ, Huang DB, Tyring SK. Subcutaneous fungal infections. *Dermatol Ther*. 2004;17:523-31.
- Rajakannu M, Vengadesh GS, Pai D, Jagdish S. Disseminated rinosporidiosis- an unusual presentation with pulmonary involvement. *Int J Dermatol*. 2006;45:297-8.
- Raveenthiran V. Metastatic rinosporidiosis in a child. *J Pediatr Surg*. 2006;41:853-5.
- Reidy JJ, Klafter AB, Olivia Ch. Infection of the conjunctiva by *Rhinosporidium seeberi*. *Surv Ophthalmol*. 1997;41:9-13.
- Sah SP, Singh RK, Ashokraj G. Urethral rinosporidiosis: report of a case presenting with a penile growth and urethral fistula. *Trans Soc Trop Med Hyg*. 1999;93:298-9.
- Sasidharan K, Subramonian P, Moni VN, Aravindan KP, Chally R. Urethral rinosporidiosis: analysis of 27 cases. *Br J Urol*. 1985;59:66-9.
- Seeber GR. Un nuevo esporozoario parásito del hombre. Dos casos encontrados en pólipos nasales. Thesis. Universidad Nacional de Buenos Aires, Imprenta Librería "Boullosa", Buenos Aires, Argentina. 1900.
- Silva V, Pereira CN, Ajello L, Mendoza L. Molecular evidence for multiple host-specific strains in the genus *Rhinosporidium*. *J Clin Microbiol*. 2005;43:1865-8.
- Venkateswaran S, Date A, Job A, Mathan M. Light and electron microscopic findings in rinosporidiosis after dapsona therapy. *Trop Med Int Health*. 1997;2:1128-32.