

NOTA CLÍNICA



Gac Med Bilbao. 2022;119(4):222-226

Leishmaniasis Mucocutánea Nasal: a propósito de un caso

Pascual-Ares Manuel^a, Orbea-Sopeña Ana^a, Ratón-Nieto Juan-Antonio^a, Goikoetxea-Aguirre Ana-Josune^b, Velasco-Benito Verónica^c

(a) Servicio Vasco de Salud-Osakidetza. Organización Sanitaria Integrada Ezkerraldea-Enkarterri-Cruces. Hospital Universitario Cruces. Servicio de Dermatología Médico-Quirúrgica y Venereología. Barakaldo (Bizkaia), España

(b) Servicio Vasco de Salud-Osakidetza. Organización Sanitaria Integrada Ezkerraldea-Enkarterri-Cruces. Servicio de Enfermedades Infecciosas. Barakaldo (Bizkaia), España

(c) Servicio Vasco de Salud-Osakidetza. Organización Sanitaria Integrada Ezkerraldea-Enkarterri-Cruces. Servicio de Anatomía Patológica. Barakaldo (Bizkaia), España

Recibido el 2 de marzo de 2022; aceptado el 15 de septiembre de 2022

Resumen:

La leishmaniasis es una enfermedad infecciosa causada por protozoos del género *Leishmania* y se transmite a través de la picadura de las hembras de las moscas de la arena. La forma mucocutánea de la leishmaniasis representa menos del 5% de los casos por lo que su aparición es poco frecuente. Sin embargo, debido a que la cuenca mediterránea española es una zona endémica para *Leishmania Infantum*, debemos incluir a esta entidad dentro del diagnóstico diferencial de las lesiones ulceradas de la piel y mucosas. Presentamos el caso clínico de un varón de 81 años que acude a la consulta de dermatología por lesiones costrosas en nariz y mucosa nasal y malestar general de un año de evolución. Tras la biopsia de la lesión, se diagnostica al paciente de una leishmaniasis mucocutánea por lo que es tratado de forma satisfactoria con anfotericina B liposomal intravenosa.

© 2022 Academia de Ciencias Médicas de Bilbao. Todos los derechos reservados.

Sudurreko Leishmaniasi Mukokutaneoa: kasu bati dagokionez

Laburpena:

Leishmaniasia *Leishmania* generoko protozoоек eragindako gaixotasun infekzioso da, eta hareazko eulien emeen ziztadaren bidez transmititzen da. Leishmaniasiarene larruazaleko forma kasuen % 5 baino gutxiago da, eta, beraz, ez da

PALABRAS CLAVE

Leishmania.
Leishmaniasis.
Mucocutánea.
Nasal.
España.
Mediterráneo.

GILTZA-HITZAK

Leishmania.
Leishmaniasia,
Larruazala
Sudur,
Espainia.
Mediterraneo.

oso ohikoa. Hala ere, Espainiako arro mediterranea Leishmania Infantum-erako eremu endemikoa denez, larruazaleko eta mukosetako lesio ultzeratuen diagnostiko bereizgarriaren barruan sartu behar dugu entitate hori. Dermatologiako kontsultara joan den 81 urteko gizon baten kasu klinikoa aurkezten dugu, narina eta sudurreko mukosan lesio zarakarrak eta urtebeteko eboluzioko ondorez orokorra dituen. Lesioaren biopsia egin ondoren, pazienteari larruazaleko leishmaniasia diagnostikatzen zaio, eta, beraz, zainbarneko B liposomal anfoterizinarekin behar bezala tratatzen da.

© 2022 Academia de Ciencias Médicas de Bilbao. Eskubide guztiak gordeta.

KEYWORDS

Leishmania.
Leishmaniasis.
Mucocutaneous.
Nasal.
Spain.
Mediterranean.

Mucocutaneous Nasal Leishmaniasis: clinical case review

Abstract:

Leishmaniasis is an infectious disease caused by protozoa of the genus *Leishmania* and is transmitted through the bite of female sand flies. The mucocutaneous form of leishmaniasis represents less than 5% of cases, its appearance therefore is rare. However, due to the Spanish Mediterranean basin being an endemic area for *Leishmania Infantum*, we must include this entity in the differential diagnosis of ulcerated skin and mucosal lesions. We present the clinical case of an 81-year-old man who attended the dermatology clinic due to crusty lesions in the nostrils and nasal mucosa and general malaise of a year's evolution. After biopsy of the lesion, the patient was diagnosed with mucocutaneous leishmaniasis and was treated satisfactorily with intravenous liposomal amphotericin B.

© 2022 Academia de Ciencias Médicas de Bilbao. All rights reserved.

Introducción

La leishmaniasis se conforma de un espectro variado de síndromes clínicos causados por la infección por protozoos del género *Leishmania* que se transmiten por la picadura de las hembras de la mosca de la arena de los géneros *Lutzomyia* y *Phlebotomus*.

La enfermedad se divide en visceral, cutánea o mucosa en función del órgano afectado, siendo en nuestro medio la afectación cutánea la más frecuente con gran diferencia¹.

Las formas mucocutáneas representan menos del 5% del total de los casos² por lo que su diagnóstico supone un verdadero reto.

Caso clínico:

Acude a las consultas de dermatología un varón de 81 años con residencia actual en Barakaldo (Bizkaia). Como antecedentes personales destaca una cirugía de ambos senos nasales por sinusitis crónica, alergia a ácaros, EPOC, hipertensión, dislipemia y una gammapatía monoclonal IgG asintomática.

Presenta, desde hace un año, lesiones costrosas e inflamación en la zona de la narina y de la mucosa nasal izquierda con malestar general asociado, sin otros hallazgos de interés en la exploración física (Figura 1). Ante dichas lesiones, se procedió a realizar una biopsia con *punch* y se solicitó además una analítica general con serologías infecciosas.

La muestra anatomopatológica de la lesión se informó como un intenso infiltrado inflamatorio que

afecta a toda la dermis llegando a zonas profundas y discreta afectación del epitelio folicular. Se observaron numerosos linfocitos reactivos, histiocitos y células plasmáticas.

En los histiocitos de la dermis papilar se observan estructuras compatibles con amastigotes de *Leishmania* (Figura 2).

Se realizó además la tinción Cd1a (que tiñe tanto células dendríticas como amastigotes de *Leishmania*³) que resultó ser positiva (Figura 3).

En la analítica general destacaba un valor ligeramente elevado de VSG, anticuerpos de autoinmunidad negativos y una serología negativa para *Treponema Pallidum* y positiva por IFI para anticuerpos contra *Leishmania Donovanii*.

Con estos datos, se orientó el diagnóstico hacia una Leishmaniasis mucocutánea. Se le realizó la prueba PCR a la muestra tisular biopsiada siendo positiva para *Leishmania Infantum* (se interpretan los anticuerpos positivos a *L. Donovanii* como reacción cruzada).

Reinterrogando al paciente nos cuenta que vive durante seis meses al año entre Málaga y Valencia, ambas ciudades pertenecientes al litoral mediterráneo.

Además, su hija que vive en Málaga tiene un perro como mascota. Sin embargo, el paciente no recordaba ni relacionaba la lesión con ninguna picadura de artrópodo.



Figura 1. Lesión macroscópica.

Discusión y conclusiones:

Reuniendo toda la información epidemiológica, clínica y anatomopatológica, se diagnosticó la lesión como una leishmaniasis mucocutánea con afectación nasal.

Debido a la afectación mucosa, se consideró una forma compleja de leishmaniasis que precisó de tratamiento sistémico.

Debido a la buena función renal previa del paciente y a su buen estado general que permitía tratamiento domiciliario con Hospitalización a domicilio, se inició tratamiento sistémico con Anfotericina B Liposomal intravenosa a dosis de 5 mg/kg. Se suspendió el tratamiento a los cinco días por un empeoramiento agudo de la función renal alcanzando el paciente una Creatinina de 2,24.

Sin embargo, la mejoría clínica fue muy significativa desde el primer momento, desapareciendo las lesiones y remitiendo la sintomatología por lo que se dio de alta al paciente.

Dos años después, el paciente reaccude a consultas por reaparición de la sintomatología con una lesión similar. Sin embargo, en este caso la lesión se encontraba solamente dentro de la mucosa nasal.

Se le realizó una nueva biopsia donde se aprecian multitud de amastigotes.

La región del litoral mediterráneo (que en España comprende desde el Cabo de Rosas en Girona hasta Gibraltar) es una zona endémica para *Leishmania Infantum* por lo que una correcta anamnesis, haciendo especial hincapié en viajes realizados a esta zona, es clave para el diagnóstico¹.

Las hembras de la mosca de la arena (del género *Phlebotomus* en España) inoculan el parásito a través de su picadura, suceso que el paciente suele recordar, y el perro doméstico actúa de reservorio habitual⁴.

La forma clínica más frecuente en España es la lesión cutánea, en el lugar de la picadura, en forma de pápula indolora que evoluciona a nódulos que se pueden ulcerar, sin afectar habitualmente a la mucosa⁵.

La forma mucocutánea representa menos del 5% de los casos por lo que, a pesar de no ser una patología habitual, no es excepcional por lo que debe formar parte de la sospecha diagnóstica⁶.

El periodo de incubación es variable, aunque suele rondar entre las dos y las 12 semanas.

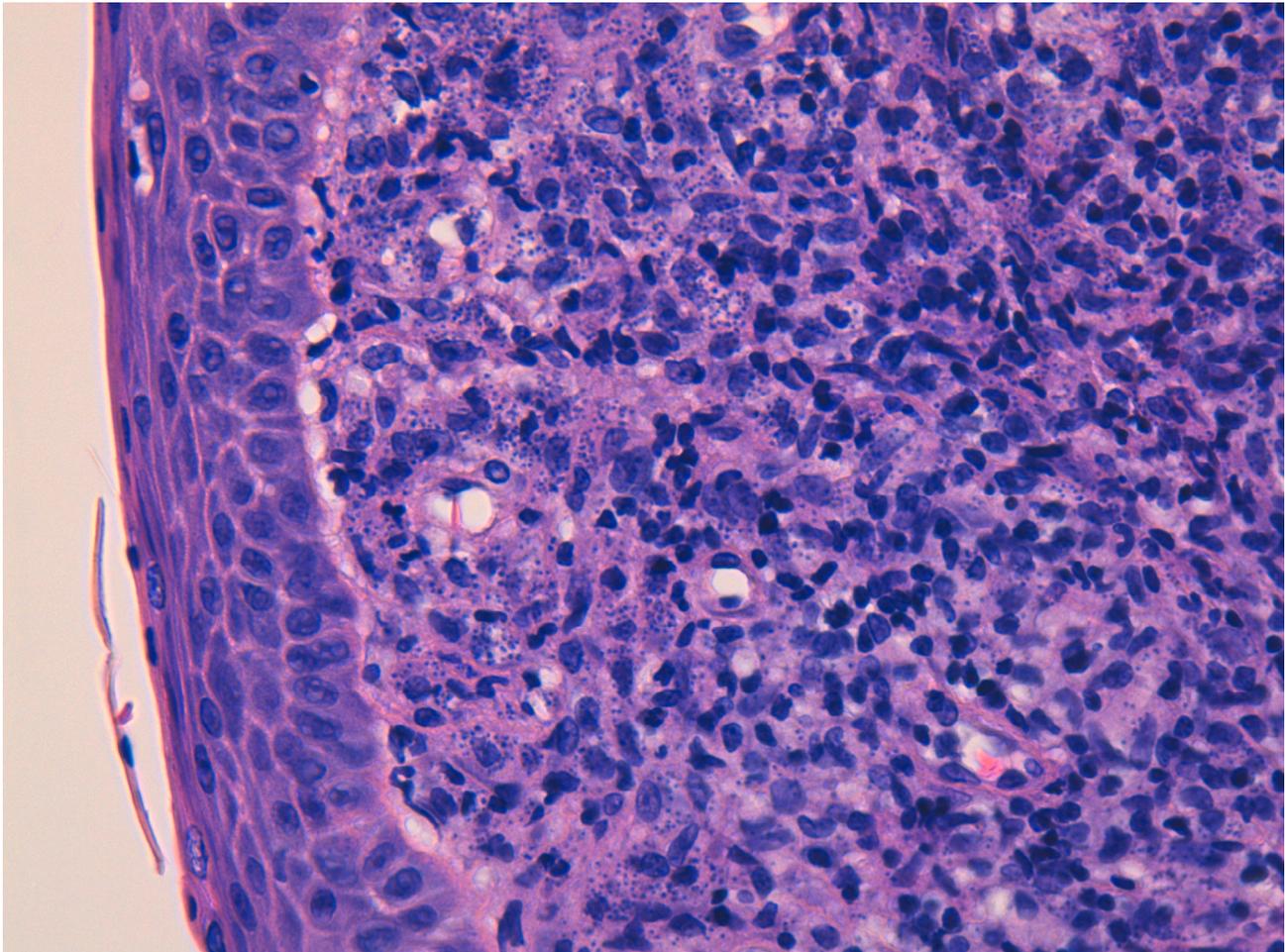


Figura 2. Tinción con Hematoxilina-Eosina donde se aprecian los amastigotes.

La clínica y el contexto epidemiológico nos orientan el diagnóstico pero, para que sea definitivo, siempre debemos demostrar la presencia del parásito en la lesión, sangre o en los tejidos del individuo.

Para ello, se realiza una biopsia de la lesión (en el caso de la forma mucosa o cutánea) o una aspiración de médula ósea (en los casos viscerales) y se realiza PCR y cultivo de la muestra. Los anticuerpos antileishmania son útiles en las formas viscerales y mucosas, pero tienen poco rendimiento en las cutáneas⁷.

El tratamiento de las formas cutáneas suele ser local con crioterapia, termoterapia o inyección intralesional de antimoniales con resultados similares. Por otro lado, las formas que afectan a las mucosas o las formas viscerales precisan tratamiento sistémico⁸ siendo de elección en nuestro medio la Anfoterina B liposomal⁹⁻¹⁰.

Declaraciones de autoría:

M. Pascual y J. Ratón aportaron la idea principal, seguimiento del caso clínico y escritura del manuscrito. A. Orbea y V. Velasco analizaron las muestras anatomopatológicas y aportaron las imágenes de las biopsias.

AJ. Goikoetxea realizó el seguimiento del caso clínico. Todos los autores aportaron ideas, interpretaron los hallazgos y revisaron los borradores el manuscrito. Todos los autores aprobaron la versión final. M. Pascual es el responsable del artículo.

Financiación:

Sin financiación.

Conflicto de intereses:

Sin conflictos de interés.

Bibliografía:

1. Aronson NE, Copeland NK, Magill AJ. Leishmania Species: Visceral (Kala-Azar), Cutaneous, and Mucosal Leishmaniasis. En: Mandell, Douglas, and Bennett's Principles and Practice of Infectious Diseases. 9ª ed. Madrid: Elsevier Inc.; 2021. P. 3321-39.
2. Garrido-Jareño M, Sahuquillo-Torralba A, Chouman-Arcas R, Castro-Hernández I, Molina-Moreno JM, Llavador-Ros M, et al. Cutaneous and mucocutaneous leishmaniasis: Experience of a Mediterranean hospital. Parasites and Vectors. 2020; 13:24.

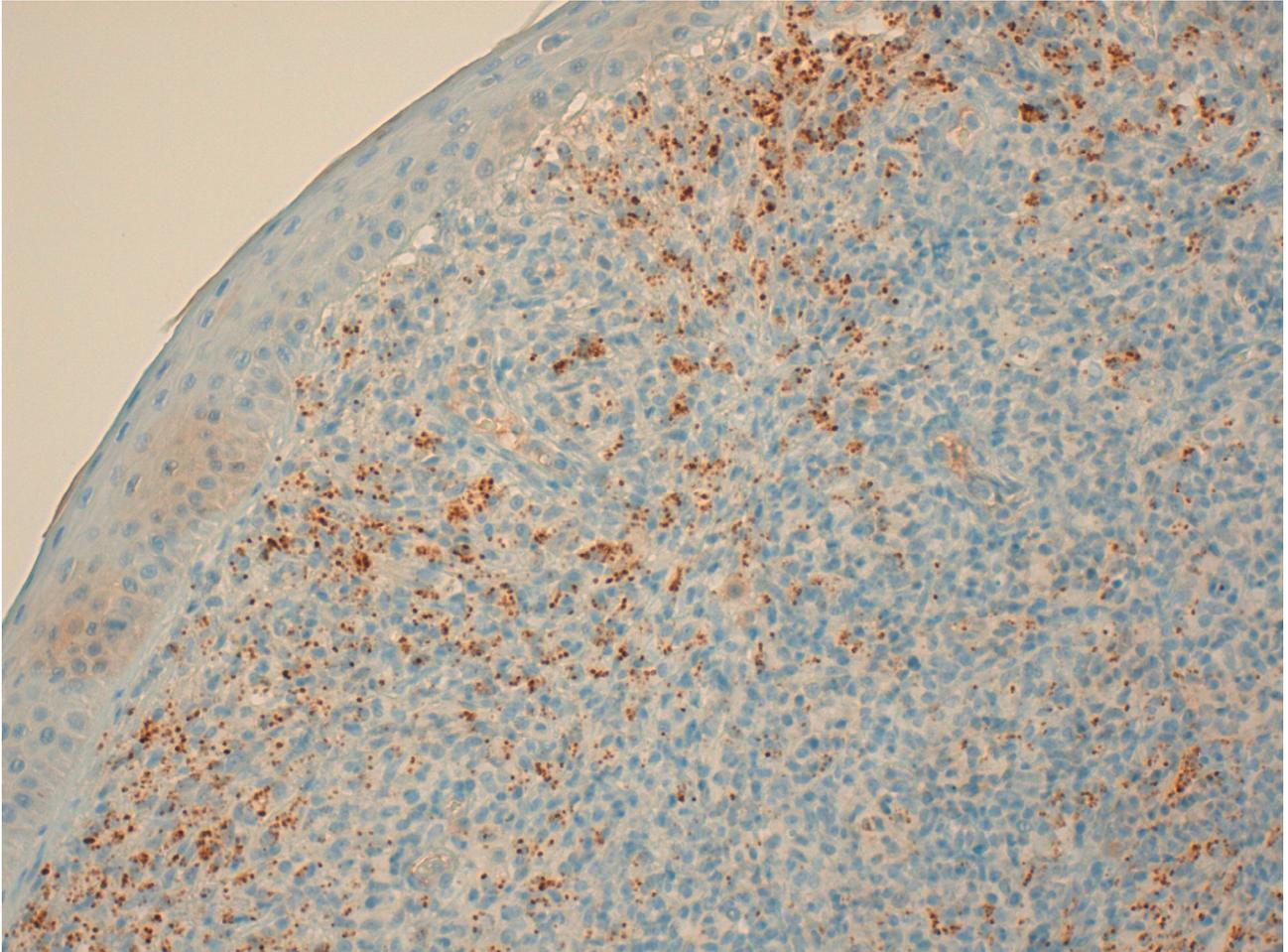


Figura 3. Inmunohistoquímica con Cd1a +.

- Gutiérrez J, Pabón S, Manzotti C, González J, Vallejo A, Vázquez C, Ríos-Martín J. Utilidad de CD1a en el diagnóstico de la leishmaniasis cutánea. A propósito de un caso. Póster presentado en: XXXVI Reunión – Sociedad Española de Anatomía Patológica; 2018 Nov 16; Hospital Costa del Sol de Marbella (Málaga).
- Reithinger R, Dujardin JC, Louzir H, Pirmez C, Alexander B, Brooker S. Cutaneous leishmaniasis. *Lancet Infect Dis.* 2007; 7: 581-96.
- García-Almagro D. Cutaneous leishmaniasis. *Actas Dermo-Sifiliogr.* 2005; 96: 1-24.
- Martínez-Jordá R, Quindós G, Pontón J y Cisterna R. Tratamiento con rifampicina de un caso de leishmaniasis cutánea. *Rev Esp Microbiol Clin.* 1991; 6: 348-50.
- Burza S, Croft SL, Boelaert M. Leishmaniasis. *The Lancet* 2018; 392: 951-70.
- López Carvajal L, Higueta-Gutierrez LF, Cardona-Arias JA. Eficacia de Anfotericina B y Rifampicina en el Tratamiento de la Leishmaniasis Cutánea: Metanálisis. *Arch Med.* 2016; 12(4): 7
- Aronson NE, Joya CA. Cutaneous Leishmaniasis: Updates in Diagnosis and Management. *Infect Dis Clin North Am.*; 2019; 33: 101-17.
- Control de las leishmaniasis: informe de una reunión del Comité de Expertos de la OMS sobre el Control de las Leishmaniasis, Ginebra, 22 a 26 de marzo de 2010. Organización Mundial de la Salud. [actualizado 21 febrero 2022; citado 21 de mayo de 2013] Disponible en: <https://apps.who.int/iris/handle/10665/82766>