

Leishmaniasis mucosa laríngea sin puerta de entrada evidente: presentación de un caso clínico

Leishmaniasis laryngeal mucous without apparent input: a clinical case presentation

Ernesto Rojas Cabrera^{1,a,b}, Jose Miguel Guzmán Rivero^{1,b}, Aleida Verduguez Orellana^{1,b}

Resumen

En Bolivia se ha podido evidenciar la circulación de 5 especies de parásitos de Leishmania: *L (V.) braziliensis*; *L (V.) lainsoni*; *L (V.) guyanensis*; *L (L.) amazonensis* y *Leishmania (L.) chagasi*. El compromiso mucoso es producida principalmente por agentes que pertenecen al complejo *Leishmania (Viannia) braziliensis*, que habitualmente está asociado a lesiones cutáneas y mucocutáneas. Se comenta el presente caso de un paciente del sexo masculino de 34 años de edad, que por razones de trabajo permaneció durante algunos años en zona endémica para *leishmania*, abandonando luego sin previo antecedente de lesiones cutáneas. El reporte de la endoscopia y el informe histopatológico no definieron el diagnóstico etiológico del cuadro, pero aportaron al indicar la presencia de alteraciones granulomatosas en laringe y descartar proceso maligno o tuberculoso. Los antecedentes epidemiológicos y una prueba de Intradermorreacción de Montenegro (IDRM) positivo apoyaron la decisión de iniciar un ciclo de tratamiento con N-metil-glucamina, demostrando una muy buena evolución clínica tras ser examinado en los siguientes 6 meses después del tratamiento.

Palabras claves: leishmaniasis; leishmania braziliensis; enfermedades de la laringe.

Abstract

It has been made evident in Bolivia the circulation of 5 species of *Leishmania parasites*. *L (V) braziliensis*, *L(V) lainsoni* *L (V) guyanensis*, *L (L) amazonensis* and *Leishmania (L) chagasi*. The mucosal involvement is produced mainly by parasites of the *Leishmania (Viannia) braziliensis* complex, which is usually associated with cutaneous and mucocutaneous lesions. It is discussed the case of a male patient 34 years of age, that worked for some years in an endemic leishmaniasis area, and he left the endemic area without history of skin lesions. The report of endoscopy and histopathology did not define the etiologic diagnosis of leishmaniasis, but they provided evidence of granulomatous changes in the larynx, ruled out malignancy or tuberculosis. The epidemiological history and the positive intradermal test of Montenegro (IDRM) supported the decision to start a course of treatment with N-methyl-glucamine and demonstrated an excellent clinical improvement in the following 6 months post treatment.

Keywords: leishmania; leishmania braziliensis; laryngeal diseases.

La leishmaniasis origina importantes problemas de salud pública y producen un gran impacto social¹. La leishmaniasis, es una parasitosis de evolución crónica que se transmite al hombre por la picadura de dípteros hematófagos, que puede manifestarse con afecciones cutáneas, de mucosas (mucocutáneas) o de vísceras, dependiendo tanto de la especie de *Leishmania* como de la respuesta inmune del hospedero². En Bolivia se ha podido demostrar la circulación de 5 especies de parásitos de leishmania: *L (V.) braziliensis*; *L (V.) lainsoni*; *L (V.) guyanensis*; *L (L.) amazonensis* y *Leishmania (L) chagasi*^{3,4}. La primera es agente de la Leishmaniasis Cutáneo Mucosa (LCM) responsable del 85% de los casos de *Leishmania* en Bolivia⁵; la segunda y tercera producen *Leishmania* Cutánea (LC), la cuarta *Leishmania* Cutáneo Difusa (LCD) en individuos inmuno comprometidos y la quinta es agente de *Leishmaniasis* Visceral (LV), esta última se presenta como casos clínicos esporádicos⁴.

La leishmaniasis mucosa habitualmente está asociado a lesiones cutáneas. La leishmaniasis mucocutánea, son lesiones que contienen pocos parásitos, pero que progresan a menudo causando daño histopatológico, anatómico y funcional de las membranas mucosas orales, nasales, faríngeas o laríngeas⁶. Las lesiones cutáneas y las lesiones mucosas pueden presentarse simultáneamente durante el curso de la infección, no

obstante las lesiones mucosas pueden también aparecer después de varios años de la curación de las lesiones cutáneas originales no tratadas o inadecuadamente tratadas¹.

Se admite que una proporción de personas expuestas a la picadura del vector no desarrollan la enfermedad (leishmaniasis inaparente) identificadas únicamente mediante pruebas inmunológicas como la prueba de Montenegro positiva o presencia de anticuerpos específicos⁴. El riesgo para ellos donde la infección es principalmente por *L (V.) braziliensis*, es el de desarrollar lesiones mucosas en un periodo corto o muchos años, donde es posible que ya no se encuentre en área endémica, situación que dificulta el diagnóstico al no realizar una adecuada anamnesis.

Presentación del caso

Se presenta el caso de un paciente del sexo masculino de 34 años de edad, casado, de profesión albañil, procedente de Cochabamba, con residencia actual en la localidad de Chiñata Sacaba, sin antecedentes patológicos de importancia para la patología actual.

El 28 de febrero del 2011, realiza consulta en el Centro Universitario de Medicina Tropical (CUMETROP) de la Facultad de Medicina de la Universidad Mayor de San Simón por presentar disfonía desde aproximadamente 4 años, que se intensificó de manera progresiva durante los último meses con dificultad respiratoria, disfagia y pérdida de peso no cuantificada.

A partir de sus 20 años trabajó como obrero en actividades de campo en varias comunidades del trópico de Cochabamba en las provincias de Chapare y Carrasco tropical (San Gabriel,

¹Instituto de Investigaciones Biomédicas (IIBISMED), Facultad de Medicina, Universidad Mayor de San Simón, Cochabamba, Bolivia.

^aMédico especialista en Medicina Tropical; ^bDocente Investigador

*Correspondencia a: Ernesto Rojas Cabrera.

Correo electrónico: ernesto.rojas.cabrera@gmail.com

Recibido el 27 de octubre de 2011, Aceptado el 17 de noviembre de 2011

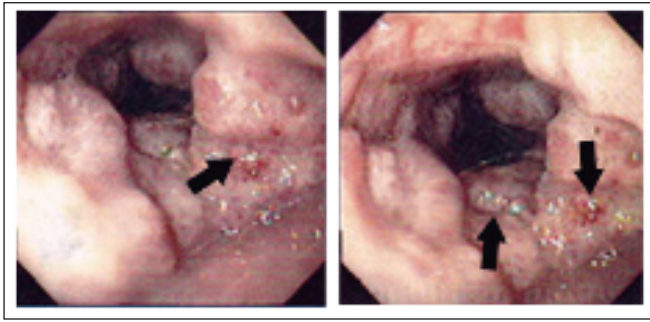


Figura 1. Endoscopia previa al tratamiento. Presencia de lesiones nodulares y granulomatosas en región glótica, aritenoides, espacio interaritenoides.

Minera Llallagua, Sajama, Ivirgarzama). Durante este tiempo no refiere haber padecido algún cuadro de importancia. Actualmente y desde hace 5 años radica en la localidad de Sacaba ejerciendo como ayudante de construcción de viviendas.

Al examen físico, paciente consciente, orientado, con dificultad respiratoria, enflaquecido, denota enfermedad crónica. Piel y faneras de apariencia normal.

En el servicio se aplica la prueba de Intradermorreacción de Montenegro (IDRM) y es observada a las 48 horas una reacción de 9x12 mm (IDRM positiva).

Un estudio laringoscópico de fecha 13/12/2010 revela una epiglotis edematizada, congestiva, valléculas no valorables. La región glótica, aritenoides, espacio interaritenoides ocupada por lesiones nodulares, granulomatosas, difusamente distribuidas, de las que se tomaron biopsia. La impresión diagnóstica fue de Tuberculosis laríngea (fig. 1).

El informe histopatológico de la pieza obtenida fue de tejido con severo infiltrado inflamatorio crónico y agudo inespecífico con zonas de necrosis y ulceración, ausencia de granulomas, células gigantes de Langhans y necrosis de caseificación que sugería tuberculosis, definiéndose como un proceso inflamatorio crónico activo ulcerado inespecífico de etiología no tuberculosa. El resultado de la baciloscopia realizada por el programa nacional de control de tuberculosis del 16/12/2010, fue negativa.

Con la confirmación de una prueba de IDRM positiva y los antecedentes epidemiológicos, se decide realizar un ciclo de tratamiento con antimonio de meglumine (Glucantime®) a dosis establecidas por el programa nacional de leishmaniasis de 20 mg/kg día por 30 días. Durante la administración del medicamento no se presentaron efectos adversos y el paciente expresó mejoría a partir de la primera semana de iniciado el tratamiento.

Un control clínico realizado al finalizar el tratamiento, al mes, a los tres meses y seis meses confirmó un cambio positivo en la evolución del cuadro, mejorando la voz y la dificultad respiratoria. Un nuevo estudio endoscópico de control a los 6 meses del tratamiento reportó una epiglotis edematosa, valléculas normales, región glótica edematosa, aritenoides y espacio interaritenoides de aspecto edematoso, disminución del espacio entre ambas cuerdas vocales con movilidad conservada. Los cambios encontrados en el último estudio fueron notablemente menores en relación a los encontrados en el pri-

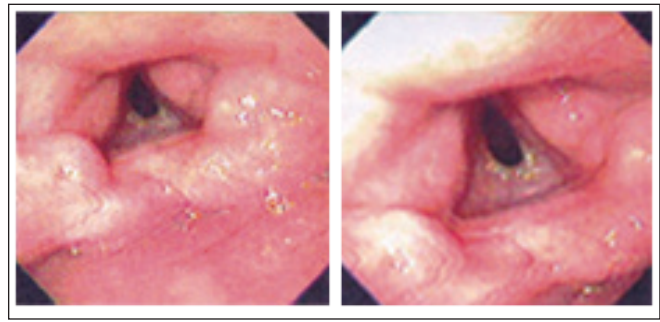


Figura 2. Endoscopia a los 6 meses post tratamiento. Muestra desaparición de las lesiones nodulares y granulomatosas.

mer examen (fig. 2).

Discusión

Las leishmaniasis tegumentarias americanas (LTA) son un grupo de enfermedades producidas por parásitos Protozoarios del Género *Leishmania*, los mismos que son transmitidos por un insecto hematófago del Género *Lutzomyia*, corrientemente denominado *flebótomo* y tienen como reservorio a animales selváticos. La enfermedad inicia generalmente con la aparición de una lesión ulcerativa cutánea en el lugar de la inoculación de los parásitos y es menos frecuente con lesiones mucosas por diseminación hematogena.

Está ampliamente documentado que la leishmaniasis está favorecida por alteraciones en la inmunidad sistémica, como ocurre en los casos de portadores del VIH, o por el uso de inmunosupresores durante el tratamiento y el abuso crónico de alcohol⁶⁻⁸. El presente caso no tenía estos antecedentes, que fueron descartados mediante examen clínico, la reactivación de una primolesión cutánea con su posterior diseminación y localización laríngea.

De las inflamaciones inespecíficas más frecuentes observadas en la unidad de otorrinolaringología se observan las laringitis agudas, patologías tumorales benignas y malignas. Por otra parte, las laringitis específicas son procesos excepcionales y en su mayoría crónicos, de tipo granulomatoso con tendencia a la ulceración y a la necrosis, por esta razón el diagnóstico diferencial de la leishmaniasis laríngea involucra descartar el cáncer de laringe, la tuberculosis laríngea y la histoplasmosis⁸. El diagnóstico de certeza de esta enfermedad se facilita mediante las muestras obtenidas por frotis o cultivos de lesiones accesibles con una sensibilidad del 60 al 80%, respectivamente. Sin embargo la localización de lesiones en laringe, dificulta un buen muestreo y por otro lado el examen de las muestras por biopsia requiere de personal especializado. Dado el buen pronóstico y la excelente respuesta al tratamiento, es necesario pensar en esta entidad —sobre todo en lesiones laríngeas con movilidad mantenida—, una vez descartada malignidad, papilomatosis y otras lesiones granulomatosas específicas. De esta manera el paciente se beneficiará de un tratamiento efectivo y se evitará la cronificación de su patología así como las múltiples visitas al especialista en busca de un diagnóstico definitivo¹⁰.

Los casos de leishmaniasis laríngea primaria son extremadamente raros, cierto porcentaje de los individuos parasitados con algunas especies del sub-género *Viannia* desarrollan lesiones metastásicas con localizaciones subcutáneas linfonodulares, llamadas formas «esporotricoides» causadas por *L (V.) guyanensis*², y localización en ganglios linfáticos^{3,5} y mucosa del tracto respiratorio naso-buco-faríngeo-laríngeos provocadas por *L (V.) braziliensis* y, menos frecuentemente, por *L. panamensis*¹¹. De los casos humanos con leishmaniasis mucocutánea diagnosticados en Bolivia todas son causadas por el complejo *Leishmania (Viannia) braziliensis* y las que desarrollan únicamente lesiones cutáneas las especies de los complejos *L (V.) amazonensis*, *L (V.) guyanensis*¹¹.

En los últimos 24 años (1983 a 2006), se registraron en el país 35 714 casos autóctonos de Leishmaniasis Tegumentaria Americana, 10 casos de Leishmaniasis visceral y 4 casos de Leishmaniasis cutáneo difusa. Comparando los casos reportado durante el año 1983 (278 casos) y los del año 2003 (2452 casos), se observa una tendencia secular en aumento, relacionada con la expansión geográfica, debido a los importantes movimientos poblacionales de colonización en nuevas áreas

geográficas donde se desarrollan proyectos socio económicos o de subsistencia. A partir de 1990 los casos notificados pasan del millar de personas; el año 1998 se certifica la ocurrencia de casos en el departamento de Tarija, aumentando así el sexto departamento a la zona endémica de Bolivia. El año 2004 el número de casos notificados bordean los 2800 personas; en todo este periodo se debe tomar en cuenta la existencia de sub registro de casos y la mayoría de las veces solamente la realización de detección pasiva de casos⁴.

El Centro Universitario de Medicina Tropical (CUMETROP) en el periodo del 1998 al 2000, mediante estudios epidemiológicos en la población asentada en el Parque Isiboro Sécure, encontró un 10% de formas inaparentes de la enfermedad, diagnosticada mediante pruebas inmunológicas (datos propios, no publicados). La particularidad del presente caso debe llamarnos la atención al momento de realizar el diagnóstico clínico, puesto que se debe tener presente la posibilidad entre otras patologías, formas inaparentes de leishmaniasis.

Conflictos de interés: Los autores declaran no tener conflictos de interés en la publicación de este caso.

Referencias bibliográficas

1. Saenz-Anduraga E, Chavez-Mancilla M. Leishmaniasis en el Hospital Militar Central: Estudio clínico epidemiológico [c 10 sept 2011]. Dermatol Peru 2004; 14(2):110-20. Disponible en: http://revistas.concytec.gob.pe/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S_1028-71752004000200005&lng=es&nrm=iso. ISSN 1028-7175.
2. Caseror R, Laconte L, Fraenza L, Iglesias N, Quinteros C G, Villablanca ML; Leishmaniasis laríngea recidivante: un caso inusual en un paciente inmunocompetente tratado con corticoides. Rev Arg Microbiol 2010, 42: 118-121.
3. Bermudez H; Rojas E. Leishmaniasis Tegumentaria en Cochabamba Bolivia. Editorial Moca 2002. Pg. 11-15.
4. Leishmaniasis: guía operativa para el control en Bolivia.- La Paz; MSD; 2007. 69 p. ilus. mapas. tab. graf. (Documentos Técnico - Normativos, 1). Disponible en: <http://www.ops.org.bo/textocompleto/nleis30576.pdf>
5. Rojas E, Parrado R, Delgado R, Reithinger R, Garcia AL. Leishmaniasis in Chapare, Bolivia. Emerg Infect Dis 2009, 15(4): 678-80.
6. Garcia AL, Tellez T, Parrado R, Rojas E, Bermudez H, Dujardin JC. Epidemiological monitoring of American tegumentary leishmaniasis: molecular characterization of a peridomestic transmission cycle in the Amazonian lowlands of Bolivia. Trans R Soc Trop Med Hyg 2007; 101(12): 1208-13.
7. Romero HD, Taranto NJ, Malchiodi EL; Asociación de sida y leishmaniasis tegumentaria americana en Argentina. Medicina (B. Aires) 2004; 64(1): 47-50 .
8. Pittalis S, Nicastrì E, Spinazzola F, Ghirga P, De Marco M, Paglia MG, Narciso P. Leishmania infantum en pacientes tratados con corticosteroides. BMC Infect Dis 2006, 6: 177 .
9. Javier Ibarra de la Rosa, Fernando Terrasa Sagraistá, Antonio Mir Le-meur, Francisco Homar Borràs; Leishmaniasis laríngea aislada (primaria). Presentación de un caso. X Congreso Virtual Hispano Americano de Anatomía Patológica, 2009, ISBN: 978-84-692-76778.
10. Mollinedo S, Torrez M, Holguin E, Vargas F. Leishmaniasis en Bolivia: epidemiología de fin de siglo. Revista Médica (La Paz) 2000; 7(1): 23-34
11. Cuba-Cuba C. Diagnóstico Parasitológico de la Leishmaniasis Tegumentaria Americana. Rev Peru Med Exp Salud Publica 2000; 17(1-4): 39-52.