

## ***Presentación de un caso: Leishmaniasis mucocutánea y rinosinusitis crónica con antecedente de Leishmaniasis cutánea resuelta***

Raul, Baca Bellido<sup>1,2</sup>

### **RESUMEN**

La leishmaniasis es una enfermedad parasitaria que puede ser crónica especialmente en sus formas cutánea y mucocutánea, estas dos formas pueden coexistir o aparecer una después de la otra. La forma cutánea es la más frecuente, pero en los últimos años la forma mucocutánea ha tenido una incidencia constante esto puede deberse a la presencia híbrida entre *L. braziliensis* y *L. peruviana*. Las lesiones en la mucosa pueden complicarse si no se realiza un diagnóstico y tratamiento oportuno, pudiendo existir asociación con patologías como la rinitis alérgica, sinusitis crónica, desviación de tabique, rinitis atrófica y pólipos nasales. Presentamos un caso de *L. cutánea* resuelta. Después de 18 años, la paciente fue diagnosticada con leishmaniasis mucocutánea, pero no completó el tratamiento. Tres años después, volvió a recibir tratamiento, el cual fue suspendido debido a la falta de mejoría. La paciente tuvo vómitos con coágulos de sangre y molestias nasales por lo que decidió ir al servicio de emergencia del hospital. Fue diagnosticada con hemorragia digestiva alta inactiva, rinosinusitis crónica y *L. mucocutánea*. El tratamiento incluyó antibióticos y se esperaron los resultados de la biopsia para reiniciar el tratamiento con anfotericina B.

**Palabras clave:** *Leishmaniasis, mucocutánea, sinusitis, cutáneo, crónico (fuente: DeCS BIREME)*

### ***Case presentation: Mucocutaneous leishmaniasis and chronic rhinosinusitis with a history of resolved cutaneous leishmaniasis***

### **ABSTRACT**

Leishmaniasis is a parasitic disease that can be chronic, especially in its cutaneous and mucocutaneous forms. These two forms can coexist or appear one after the other. The cutaneous form is the most common, but in recent years the mucocutaneous form has had a constant incidence, this may be due to the hybrid presence between *L. braziliensis* and *L. peruviana*. Lesions in the mucosa can become complicated if timely diagnosis and treatment are not made, and there may be an association with pathologies such as allergic rhinitis, chronic sinusitis, deviated septum, atrophic rhinitis and nasal polyps. We present a case of resolved *L. cutaneous*. After 18 years, the patient was diagnosed with mucocutaneous leishmaniasis, but she did not complete treatment. Three years later, she returned to receive treatment, which was stopped due to lack of improvement. The patient had vomiting with blood clots and nasal discomfort so she decided to go to the hospital emergency service. She was diagnosed with inactive upper gastrointestinal bleeding, chronic rhinosinusitis, and mucocutaneous *L.* Treatment included antibiotics and we awaited the biopsy results before restarting treatment with amphotericin B.

**Keywords:** *Leishmaniasis, mucocutaneous, sinusitis, cutaneous, chronic (source: Mesh, NLM)*

**1. Facultad de Medicina Humana, Universidad Nacional de San Antonio Abad del Cusco, Perú**

**2. Hospital Regional del Cusco, Perú**

**ORCID:** <https://orcid.org/0009-0007-7127-936X>

## INTRODUCCIÓN

La Leishmania es un protozoo transmitido mediante moscas hembra infectadas de los géneros Lutzomya y Phlebotomus, estos vectores al inocular el parásito producen la enfermedad denominada leishmaniasis (L) el cual causa produce una afección de característica infecciosa-crónica. Hay variantes principalmente zoonótica, con cánidos y roedores como reservorios, en los casos de Leishmania tropica y Leishmania donovani, el ser humano es el principal reservorio (1). Existen tres formas: cutánea, mucocutánea y visceral, siendo una de las nueve patologías tropicales más importantes (2). Se calcula que cada año se produce hasta un millón de incidencias de casos, con zonas endémicas (3). En América, la enfermedad prevalece desde el sur de EE. UU. hasta Uruguay, con tipos andinos específicos en Perú y Ecuador. El diagnóstico incluye observación clínica y pruebas microbiológicas como la tinción de Giemsa y PCR. Las lesiones cutáneas típicas son úlceras no dolorosas en áreas expuestas(1,4,5). Sin tratamiento, un 15% puede evolucionar a L. mucocutánea, causando mutilaciones extensas (5).

La elección primaria en el tratamiento es el Antimonio Pentavalente, preferiblemente asociarlos con otras terapias debido a sus efectos adversos. La anfotericina B liposomal es el tratamiento de segunda línea (1,4,6). Un caso presentado mostró la aparición de L. mucocutánea y rinosinusitis crónica 18 años después de la resolución de la L.

cutánea, destacando la necesidad de seguimiento a largo plazo. Un estudio en Huánuco, Perú, identificó una incidencia constante de L. mucocutánea, probablemente debido a una cepa híbrida, a diferencia de España, donde la forma cutánea es más común (7). Una investigación resaltó la importancia del examen otorrinolaringológico para el diagnóstico correcto de leishmaniasis, mostrando que la rinosinusitis crónica puede asociarse a la leishmaniasis (8).

A continuación, se presenta un caso con antecedente de L. cutánea y aparición después de muchos años la L. mucocutánea con rinosinusitis crónica.

## PRESENTACION DE CASO

Mujer de 41 años de edad, originaria de Puerto Maldonado, Madre de Dios, procedente de Cusco, ambas zonas endémicas de leishmaniasis. Relató que hasta 2019 realizaba viajes frecuentes al lugar de donde es originaria. Tiene antecedentes de L. cutánea en 2001, tratada solo con Glucantime®, fue resuelta, dejando una cicatriz de 7x3 cm en la zona anterior de la pierna izquierda. También tiene antecedentes de faringoamigdalitis crónica diagnosticada en 2017. En 2021, se le diagnosticó L. mucocutánea y recibió tratamiento con anfotericina B, el cual no completó. En 2023, volvió a recibir el tratamiento, pero lo dejó en 2024 después de cuatro meses debido a no presentar mejoría.

La paciente acude al servicio de emergencia por náuseas y vómitos acompañados de coágulos de sangre. Además, relató sentir molestias nasales

desde hace mucho tiempo, congestión nasal, secreción mucopurulenta y heridas en las fosas nasales, las cuales se intensificaron al dejar el tratamiento con anfotericina B.

Al examen físico se observó deterioro erosivo de mucosa de la narina de lado

izquierdo y compromiso del cartílago nasal septal (Figura1), en la cavidad orofaríngea se encontró lesiones de aspecto granulomatoso e hipertrofia amigdalal sin presencia de úvula (Figura2), dolor al palpar cuadrante superior derecho de abdomen, pérdida de peso y melena.



Figura 1: fosa nasal izquierda con costras y lesión ulcerada en región vestibular y mucosa con compromiso del cartílago septal compatibles con leishmaniasis mucocutánea.



Figura 2: cavidad orofaríngea con lesiones granulomatosas en paladar blando e hipertrofia amigdalal sin presencia de úvula.

En los exámenes auxiliares realizados durante la endoscopia se evidenció un paladar blando tortuoso con una arquitectura de aspecto ulcerado y fibrinoso, úlceras esofágicas, úlceras gástricas FORREST III, lesiones elevadas en cuerpo gástrico y gastropatía eritematosa antral.

En el examen anatomopatológico realizado en la muestra del frotis del paladar, se observaron amastigotes de leishmaniasis. En la tomografía axial computada de rinofaringe, se encontraron hallazgos compatibles con rinosinusitis crónica (Figura 3).



Figura 3: Engrosamiento de mucoso en mucosa intranasal y senos maxilares, parcial engrosamiento de senos etmoidales.

El paciente fue catalogado como una hemorragia digestiva alta inactiva con diagnóstico de rinosinusitis crónica secundaria a infección de leishmaniasis se recomendó ampliar el tratamiento antibiótico con meropenem 1g EV c/8hs o ceftazidima 1g EV c/8hs y descartar sobreinfección micótica de zigomicetos además de un cultivo para gérmenes comunes y aerobios.

## DISCUSIÓN

Este parásito intracelular se transmite a través de la inoculación por la picadura de moscas hembras infectadas de los géneros *Phlebotomus* en Europa y *Lutzomyia* en América. Aunque en su

mayoría es una enfermedad zoonótica, con cánidos y roedores como los principales reservorios, en los casos de *Leishmania donovani* y *Leishmania tropica*, los humanos son el principal reservorio.(1)

Hay tres tipos principales de manifestaciones: la forma cutánea localizada o difusa, la forma mucocutánea o espundia, y la forma visceral conocida como kala-azar, está incluida dentro de las nueve patologías tropicales más importantes, siendo reconocido como un serio desafío para la salud pública a nivel global.(2)

Cada año se estima que se presentan hasta un millón de casos nuevos en todo el mundo, existen zonas endémicas como Argelia, Brasil, Iraq, Somalia, el Sudan y Yemen (3). En América, la enfermedad prevalece desde estados unidos hasta Uruguay, entre los países andinos endémicos están, Colombia, Venezuela, Ecuador Perú, Bolivia y Argentina. En Perú y Ecuador existen los llamados tipos andinos de *L. cutánea* (Andean-CL, uta) además se registraron 162 especies de *Lutzomyia* en Perú y 73 especies en Ecuador. Entre sus principales vectores del parásito *Leishmaniasis* peruana, *Lutzomyia peruensis* parecía ser predominante en altitudes más altas, seguida por *Lutzomyia verrucarum* y *Lutzomyia ayacuchensis* en las regiones endémicas de uta peruana(9).

La *leishmaniasis* se diagnostica de diversas formas, como son la sospecha clínica basada en las lesiones cutáneas hasta con pruebas de laboratorio, microbiológica e inmunológica, métodos innovadores como la reacción en cadena de la polimerasa y microscopia, existen aún métodos más modernos pero estos siguen siendo útiles para el diagnóstico.(1)

Después de la inoculación del parásito en una persona sana, pueden transcurrir semanas o meses antes de que surja la primera manifestación de la enfermedad, y a menudo la picadura no se nota, lo que reduce la utilidad de la historia clínica en estos casos. Las lesiones típicas de la *leishmaniasis* cutánea son úlceras que no causan

dolores, con límites elevados y una centro limpio, localizadas en áreas expuestas, estas pueden ser rostro, miembros inferiores y superiores (1,4,5).

Las manifestaciones cutáneas son diversas. Después de la inoculación, surge una lesión primaria, pápula endurecida sin eritema ni descamación. Después de un par de semanas, aparece la lesión con características de una úlcera con una costra en la zona media y los límites exaltados. Sin tratamiento, aproximadamente el 15% de los casos evoluciona a *leishmaniasis* mucocutánea, generando destrucción de los cartílagos nasales y del paladar blando, lo que lleva a lesiones crónicas destructivas y extensas mutilaciones que afectan los tejidos subyacentes. Cuando la mucosa de la cavidad oral está involucrada, se puede observar la pérdida de la úvula, afectación del velo del paladar y una apariencia irregular en la mucosa del paladar duro. Esta enfermedad también puede comprometer las vías respiratorias superiores, similar a nuestro paciente que perdió la úvula y presentó lesiones en la orofaringe (5).

La *L. mucocutánea* puede coexistir con la *leishmaniasis* cutánea o manifestarse tras su resolución, incluso después de varios años. La diseminación puede ocurrir a través de la sangre o del sistema linfático, y en países endémicos, su prevalencia alcanza hasta el 20%.(1), como en el caso presentado al ser de Perú la paciente presenta un alto riesgo ya que este país es una zona endémica en el continente americano.

Después de una sospecha clínica, se contacta a un microbiólogo para visualizar directamente el parásito al microscopio con la tinción Giemsa una vez que se identifique una lesión posible de leishmaniasis. Aunque no siempre están disponibles, también se puede diagnosticar indirectamente mediante ELISA e inmunofluorescencia y pruebas de anticuerpos. Si hay una fuerte sospecha clínica pero la histología no ofrece conclusiones claras, estas pruebas pueden ser útiles. No obstante, se emplean principalmente en el diagnóstico de la leishmaniasis visceral en lugar de la cutánea.(4).

La gran mayoría de casos de leishmaniasis cutánea se resuelve sin ningún tratamiento en un promedio de 2 años, esto varía según la especie de involucrada (1), siendo en nuestro continente *Leishmania panamensis* y *Leishmania braziliensis* aquellas con principal riesgo de mortalidad y permanencia (10). En la *L. cutánea* y mucocutánea el manejo de elección para la es el Antimonio Pentavalente (Glucantime® o Pentostam®), 20 mg/kg intramuscular por día, el problema con esta son sus efectos adversos por eso se prefiere la combinación de antimonio pentavalente más otra droga o crioterapia por la menor cantidad de recidivas y mayor tasa de curación en comparación con la monoterapia. El de segunda línea es la Anfotericina B liposomal la dosis es de 3mg/kg por día IV durante 7 días, hasta llegar a la dosis final de 21 mg/kg. (1,4,6)

Recopilando todos los datos epidemiológicos, clínicos y exámenes auxiliares del caso descrito lo particular es la presencia de una rinosinusitis crónica secundaria a la leishmaniasis además de la aparición de la *L. mucocutánea* 18 años después de la resolución de la *L. cutánea*. Un estudio descriptivo, retrospectivo de base poblacional Ambo, Huánuco, Perú identifico que la presentación cutánea es la más común sin embargo la mucocutánea ha venido presentando una incidencia constante durante los últimos años, probablemente debido a la presencia híbrida entre *Leishmania braziliensis* y *Leishmania peruviana* (7). En España también la forma más frecuente es la cutánea pero la diferencia está en la frecuencia de la mucocutánea, solo un 5%. Esto indica que hay algún factor importante que lo explique. Por lo tanto, es materia para futuras investigaciones sobre el tema si esta presencia híbrida se autolimita a la zona de Huánuco o esta presenta en otras regiones endémicas de Perú.

En una investigación sobre el valor del examen otorrinolaringológico en el correcto diagnóstico de leishmaniasis se encontró que 70% de su grupo inicial, todos diagnosticados clínicamente con *L. mucosa*, se sugirió la asociación con patologías como la rinitis atrófica o alérgica, desviación de tabique, pólipos nasales y sinusitis.

crónica no se realizaron procedimientos de biopsia. Los diagnósticos fueron confirmados por tomografía computarizada facial pero las

limitaciones de este estudio fueron que no hubo un buen diagnóstico en el centro rural o urbano un año antes de ser sometidos a una nueva evaluación(8). Encontramos al igual que en este estudio la rinosinusitis crónica en una tomografía lo que nos brinda una visión más objetiva de las lesiones secundaria que puede encontrarse en pacientes con L. mucocutánea si no se llega a un diagnóstico y tratamiento oportuno.

La presente publicación busca informar sobre cómo un seguimiento del caso

después de años puede prevenir algunas lesiones secundarias, si bien la pandemia COVID-19 limitó mucho la atención en los últimos años, los pacientes que alguna vez tuvieron leishmaniasis deberían ser monitorizados constantemente para evitar la aparición de otros cuadros o recidivas de la enfermedad.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Abadías-Granado I, Diago A, Cerro PA, Palma-Ruiz AM, Gilaberte Y. Leishmaniasis cutánea y mucocutánea. *Actas Dermo-Sifiliográficas* [Internet]. julio de 2021 [citado 1 de julio de 2024];112(7):601-18. Disponible en: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0001731021001083>
2. Alvarez Saltos MD, Alvarado Quezada AE, Nina Inca SG, Choez Abendaño YI, Saavedra Sarango JA. Leishmaniasis mucocutánea en paciente femenina de 10 años de la Amazonia Ecuatoriana. Reporte de caso. *Ciencia Latina* [Internet]. 23 de febrero de 2023 [citado 2 de julio de 2024];7(1):5746-54. Disponible en: <https://ciencialatina.org/index.php/cienciala/article/view/4881>
3. Leishmaniasis [Internet]. [citado 2 de julio de 2024]. Disponible en: <https://www.who.int/es/news-room/fact-sheets/detail/leishmaniasis>
4. Obaldía Mata AP, Delgado Rodríguez EJ, Rocha Monge SM. Abordaje de la leishmaniasis cutánea. *Rev.méd.sinerg* [Internet]. 1 de abril de 2023 [citado 2 de julio de 2024];8(4):e985. Disponible en: <https://revistamedicasinergia.com/index.php/rms/article/view/985>
5. González M, Benito F, García L, Iglesias A. Leishmaniasis mucocutánea: una enfermedad importada con repercusión en ORL. *Acta Otorrinolaringológica Española* [Internet]. julio de 2009 [citado 2 de julio de 2024];60(4):298-300. Disponible en: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0001651909000144>
6. Manuel PA, Ana OS, Juan-Antonio RN, Ana-Josune GA, Verónica VB. Leishmaniasis Mucocutánea Nasal: a propósito de un caso.

7. Samir Cubas W, Centeno-Leguía D, Arteaga-Livias K, Depaz-López E. Revisión clínica y epidemiológica de la leishmaniasis tegumentaria en una región central del Perú. *Rev chil infectol* [Internet]. diciembre de 2019 [citado 2 de julio de 2024];36(6):707-15. Disponible en: [http://www.scielo.cl/scielo.php?script=sci\\_arttext&pid=S0716-10182019000600707&lng=en&nrm=iso&tlng=en](http://www.scielo.cl/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0716-10182019000600707&lng=en&nrm=iso&tlng=en)
8. Boaventura VS, Barral-Netto M, Barral A. Short Report: The Value of the Otorhinolaryngologic Exam in Correct Mucocutaneous Leishmaniasis Diagnosis. *The American Journal of Tropical Medicine and Hygiene* [Internet]. septiembre de 2009;81(3):384-6. Disponible en: <https://www.arca.fiocruz.br/handle/icict/14788>
9. Hashiguchi Y, Gomez L. EA, Cáceres AG, Velez LN, Villegas NV, Hashiguchi K, et al. Andean cutaneous leishmaniasis (Andean-CL, uta) in Peru and Ecuador: the vector *Lutzomyia sand* flies and reservoir mammals. *Acta Tropica* [Internet]. febrero de 2018 [citado 2 de julio de 2024];178:264-75. Disponible en: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0001706X17311531>
10. Cota GF, de Sousa MR, Fereguetti TO, Saleme PS, Alvarisa TK, Rabello A. The Cure Rate after Placebo or No Therapy in American Cutaneous Leishmaniasis: A Systematic Review and Meta-Analysis. Diemert DJ, editor. *PLoS ONE* [Internet]. 19 de febrero de 2016 [citado 2 de julio de 2024];11(2):e0149697. Disponible en: <https://dx.plos.org/10.1371/journal.pone.0149697>