

¿Leishmaniasis o esporotricosis? La delgada línea del síndrome verrucoso tropical

Laura Margarita Arango Bedoya¹; Daniela Zuluaga Lotero²; Natali Naranjo Bustamante³



RESUMEN

Introducción: el síndrome verrucoso tropical comprende diversas entidades infecciosas cutáneas y ocasionalmente extracutáneas, que generan reacciones granulomatosas crónicas y tienen amplia distribución a nivel mundial en las regiones tropicales y subtropicales. Metodología: reporte de caso. Resultados y discusión: sus diagnósticos pueden ser difíciles y confundirse entre sí, lo cual es más frecuente entre la esporotricosis, la infección fúngica subcutánea y la leishmaniasis, la infección parasitaria cutánea, mucosa y visceral, por sus similitudes clínicas y epidemiológicas. Además, dada la fisiopatología de ambas entidades, pueden coinfectar de forma simultánea al mismo paciente, lo que dificulta el diagnóstico y la respuesta terapéutica y hace necesario el uso de diferentes métodos diagnósticos para diferenciarlas. A continuación, se presenta un caso de síndrome verrucoso tropical causado por la confección de esporotricosis y leishmaniasis.

PALABRAS CLAVE: Coinfección; Esporotricosis; Leishmaniasis; Síndrome verrucoso tropical.

1. Residente de Dermatología, Universidad Pontificia Bolivariana. ORCID: <https://orcid.org/0009-0008-0274-0551>
2. Residente de Dermatología, Universidad Pontificia Bolivariana. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8246-7904>
3. Dermatóloga, Universidad Pontificia Bolivariana. <https://orcid.org/0000-0002-1267-4059>

Correspondencia: Laura Margarita Arango Bedoya; **email:** laura.arangob@upb.edu.co.

Recibido: 30 / 04 / 2023; **aceptado:** 19 / 09 / 2023

Cómo citar: Arango Bedoya LM, Zuluaga Lotero D, Naranjo Bustamante N. ¿Leishmaniasis o esporotricosis? La delgada línea del síndrome verrucoso tropical: reporte de caso. Rev. Asoc. Colomb. Dermatol. Cir. Dermatol. 2023;31(3):218-23.

DOI: <https://doi.org/10.29176/2590843X.1804>

Financiación: ninguna, **conflictos de interés:** Declaramos no tener ningún conflicto de interés.

¿LEISHMANIASIS OR SPOROTRICHOSIS? THE THIN LINE OF TROPICAL VERRUCOUS SYNDROME

SUMMARY

Introduction: Tropical verrucous syndrome comprises various cutaneous and, occasionally, extracutaneous infectious entities, which generate chronic granulomatous reactions and have a wide distribution worldwide in tropical and subtropical regions. **Methodology:** Case report. **Results and discussion:** Diagnoses can be challenging and confused with each other, which is more common between sporotrichosis, the subcutaneous fungal infection, and leishmaniasis, the cutaneous, mucosal, and visceral parasitic infection, due to their clinical and epidemiological similarities. Furthermore, given the pathophysiology of both entities, they can simultaneously coinfect the same patient, which makes diagnosis and therapeutic response difficult and makes it necessary to use different diagnostic methods to differentiate them. Below, a case of tropical verrucous syndrome caused by the confection of sporotrichosis and leishmaniasis is presented.

KEY WORDS: Co-infection; Leishmaniasis; Sporotrichosis; Tropical Verrucous syndrome.

INTRODUCCIÓN

El síndrome verrucoso tropical comprende diversas entidades infecciosas cutáneas y ocasionalmente extracutáneas, que generan reacciones granulomatosas crónicas y tienen amplia distribución a nivel mundial en las regiones tropicales y subtropicales. Sus diagnósticos pueden ser difíciles y confundirse entre sí, lo cual es más frecuente entre la esporotricosis, la infección fúngica subcutánea y la leishmaniasis, infección parasitaria cutánea, mucosa y visceral, por sus similitudes clínicas y epidemiológicas; además, dada la fisiopatología de ambas entidades, pueden coinfectar de forma simultánea al mismo paciente, lo que dificulta el diagnóstico y la respuesta terapéutica y hace necesario el uso de diferentes métodos diagnósticos para diferenciarlas.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 38 años, que vivió en San José del Guaviare y Meta durante 17 años, en donde trabajaba limpiando potreros y como agricultor. Al momento de la valoración, era jardinero y vivía con un gato sano. Resto de antecedentes negativos. Consultó en urgencias en 2021 porque en 2018 (cuando trabajaba en el Meta) presentó la aparición de una pápula eritematosa única en la región posterior del brazo izquierdo, la cual se ulceró, con bordes indurados y altamente pruriginosa. Consultó al hospital local, en donde diagnosticaron leishmaniasis cutánea con examen directo y dieron tratamiento completo con Glucantime® en abril de 2018;

tuvo falla terapéutica a dicho tratamiento, por lo que fue remitido a Medellín.

Se realizaron nuevos estudios: en julio de 2018, directo y cultivos positivos para leishmania, PCR del cultivo (+) para *Leishmania panamensis*. Recibió un segundo ciclo de tratamiento con Glucantime® en agosto de 2018, nuevamente con falla terapéutica, y posteriormente un tercer tratamiento con miltefosina en noviembre de 2018 e infiltraciones perilesionales con Glucantime®, sin respuesta (1 dosis).

En 2019 presentó la aparición de nuevas placas ulceradas alrededor de la placa inicial en el miembro superior izquierdo y en el mentón. Se realizó biopsia, que evidenció inflamación crónica granulomatosa conformada por macrófagos epitelioides y células gigantes multinucleadas, con algunas estructuras que insinuaban que podían corresponder a amastigotes sin necrosis de caseificación.

El paciente perdió el seguimiento y en agosto de 2020 consultó nuevamente por lesiones activas. Se realizaron paraclínicos, como VDRL no reactivo, VIH (-), y se ordenó tratamiento con pentamidina, cuatro dosis en total, sin respuesta.

Debido a la persistencia de las lesiones, se tomaron biopsias para micosis profundas: marzo de 2021, cultivo de hongos negativos, PCR de muestra de tejido de espalda positiva para *Sporothrix schenckii*, con lo que se inició tratamiento con itraconazol desde marzo de 2021, sin mejoría de las lesiones y con progresión, por lo que en agosto de 2021 decidió realizarse manejo intrahospitalario con anfotericina B por 20 días, previa toma de nuevas muestras de tejido: granulomas epitelioides sin necrosis de caseificación, histoquímica (PAS, PAS dias-

tasa, plata metenamina, Ziehl-Neelsen (ZN), ZN modificado, Giemsa): negativo para microorganismos.

A la exploración física presentaba una placa infiltrada en la zona del mentón, de aproximadamente 5 centímetros, y eritematosa (**Figura 1**). En el brazo izquierdo mostraba tres placas ulceradas, infiltradas, con centro limpio, sin signos de sobreinfección, con áreas cicatriciales (**Figura 2**). A dichas placas se les tomó dermatoscopia (**Figura 3**). Sin lesiones en las mucosas ni en otra localización.



Figura 1. Imagen clínica: comprometiendo todo el mentón se encuentra una placa eritematosa, infiltrada, de bordes irregulares, mal definidos, de aproximadamente 5 centímetros, con algunas pápulas inflamatorias y costras mielocéricas en su interior.



Figura 2. Imagen clínica: cara interna del brazo izquierdo con tres placas de bordes irregulares, mal definidos, infiltradas, con ulceraciones mediales, centro limpio, sin signos de sobreinfección, con áreas cicatriciales, amarillas, compatibles con zonas de infiltración. Sin lesiones en las mucosas ni en otra localización.

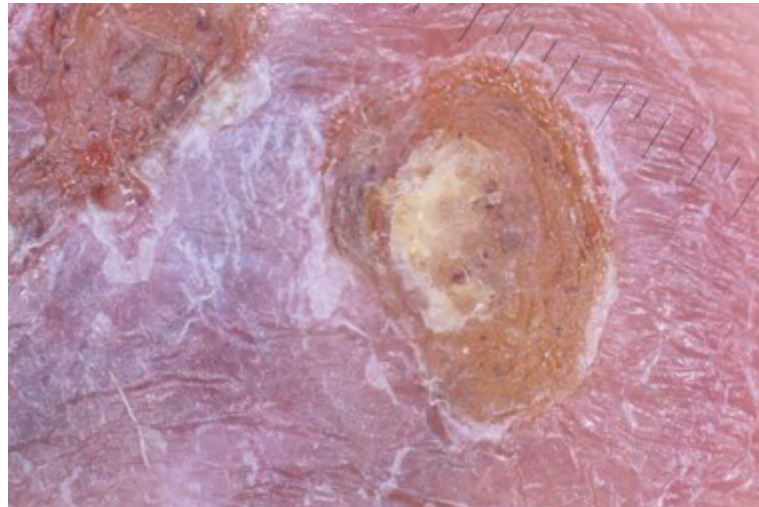


Figura 3. Imagen dermatoscópica: sobre una base eritematosa extensa y escamas blanquecinas se aprecian dos lesiones no melanocíticas, de color marrón claro, con múltiples círculos marrón oscuro, con centro amarillo, sin presencia de vasos sanguíneos.

Desde la primera semana de tratamiento con anfotericina B, el paciente mostró una respuesta clínica significativa de sus lesiones, con resolución completa del cuadro, por lo que un mes después del ingreso fue dado de alta para seguimiento ambulatorio. Hasta el momento no ha tenido nuevas recurrencias.

COMENTARIO

La leishmaniasis es una enfermedad infecciosa parasitaria transmitida por vectores, causada por más de 20 especies del género *Leishmania*⁽¹⁾, siendo la *Leishmania (Viannia) panamensis* y la *L. (V.) braziliensis* las más reportadas en Colombia⁽²⁾. En el Nuevo Mundo, es transmitida por la picadura de insectos del género *Lutzomyia*, el cual puede transmitir la infección de animales a personas o de persona a persona.

La leishmaniasis genera afectación mundial, con reportes anuales de 1,3 millones de casos nuevos aproximadamente. Las manifestaciones clínicas dependen de la localización geográfica y el compromiso visceral es el más común en el Viejo Mundo. El compromiso cutáneo es más frecuente en las Américas, el Mediterráneo y Asia, mientras que el compromiso mucocutáneo es exclusivo de las Américas⁽³⁾.

Clínicamente inicia con una pápula pequeña y bien circunscrita en el sitio de la inoculación, la cual crecerá progresivamente durante varias semanas hasta convertirse en un nódulo o una placa que típicamente se ulcera y es indolora⁽⁴⁾. Hay presentaciones atípicas, como la leishmaniasis esporotricóidea, la cual se manifiesta como una úlcera asociada a linfagitis y nódulos o como múltiples úlceras a lo largo de un trayecto linfático⁽⁵⁾.

Ocasionalmente, la evolución crónica favorece la sobreinfección por otros microorganismos, como el hongo causante de la esporotricosis, cuya epidemiología es similar⁽⁶⁾. La esporotricosis es una infección fúngica, cuyo compromiso es predominantemente cutáneo; es producida principalmente por el hongo dimorfo *S. schenckii*, el cual tiene distribución mundial; en Colombia tiene una prevalencia de nueve a 12 casos por cada 100.000 habitantes⁽⁷⁾. Ocurre principalmente en regiones tropicales y subtropicales y la micosis subcutánea es la más frecuente en Latinoamérica.

La esporotricosis es conocida como la *micosis del jardinero*, ya que se asocia a la inoculación después del traumatismo con material vegetal contaminado, aunque también hay transmisión zoonótica a partir de gatos, principalmente, y en más raras ocasiones de forma

inhalada en lugares con material en descomposición⁽⁸⁾. Tiene cuatro formas de presentación clínica: 1. Cutánea fija: pápula o nódulo en el sitio de inoculación que se ulcera; 2. Linfocutánea: pápula que al cabo de un mes, aproximadamente, se convierte en nódulo, quiste o úlcera, con diseminación linfática; 3. Cutánea multifocal o diseminada: múltiples lesiones secundarias a diseminación hematogena; y 4. Esporotricosis extracutánea, con compromiso visceral; es secundaria a inhalación. Estas dos últimas son las formas menos usuales de presentación⁽⁹⁾.

Dada la similitud de la clínica y la epidemiología de ambas entidades, es necesario basarse en métodos diagnósticos que ayuden a diferenciarlas⁽¹⁰⁾; por tanto, en muchas ocasiones se recurre a la biopsia de piel, donde infortunadamente se encuentra que en las lesiones de leishmaniasis de más de dos meses de evolución es difícil observar la presencia de amastigotes de *Leishmania sp.* y, además, que las estructuras micóticas de *Sporothrix sp.* no se observan con la tinción de hematoxilina y eosina. El estudio histopatológico de estas infecciones puede mostrar características similares, como reacciones inflamatorias polimorfas de linfocitos, células plasmáticas, histiocitos y células gigantes multinucleadas con granulomas mal formados^(6,10).

El diagnóstico de la leishmaniasis se basa en el examen directo con tinción de Giemsa, donde se evidencia la presencia de amastigotes, el cultivo o técnicas moleculares, como PCR. Por su parte, el diagnóstico de esporotricosis se basa en el cultivo y PCR, ya que no es posible visualizar al hongo en el examen directo con KOH. El tratamiento de elección para la leishmaniasis es el Glucantime® y para la esporotricosis, el itraconazol; la anfotericina B es considerada el manejo de segunda línea para ambas entidades, lo que resulta útil en casos de coinfección^(1,3,8).

CONCLUSIÓN

El síndrome verrucoso tropical puede ser causado por diferentes agentes infecciosos, los cuales pueden ser difíciles de diferenciar. El presente caso es llamativo, ya que ilustra la importancia de sospechar coinfección en casos refractarios de leishmaniasis con esquemas completos de tratamiento, realizando un enfoque diferencial con otra entidad del síndrome verrucoso tropical, especialmente esporotricosis, dada su similitud clínica, epidemiológica e histopatológica.

Puntos clave

- El síndrome verrugoso tropical se debe a múltiples casusas infecciosas crónicas y granulomatosas que característicamente provocan lesiones de tipo placas, nódulos o úlceras verrugosas.
 - El diagnóstico etiológico puede convertirse en un desafío dada la similitud de las lesiones, especialmente en los casos de esporotricosis y leishmaniasis, por lo que es necesario hacer uso de herramientas diagnósticas como el examen directo, la biopsia de piel, las coloraciones especiales, el cultivo y la PCR.
 - Es importante considerar la coinfección entre esporotricosis y leishmaniasis en los casos en que no ocurra una respuesta a esquemas de tratamiento adecuados para cada una de estas infecciones.
-

REFERENCIAS

1. Gurel MS, Tekin B, Uzun S. Cutaneous leishmaniasis: A great imitator. *Clin Dermatol*. 2020;38(2):140-51. <https://doi.org/10.1016/j.clin-dermatol.2019.10.008>
2. Salgado-Almario J, Hernández CA, Ovalle CE. Geographical distribution of Leishmania species in Colombia, 1985-2017. *Biomedica*. 2019;39(2):278-90. <https://doi.org/10.7705/biomedica.v39i3.4312>
3. Organización Panamericana de la Salud. Directrices para el tratamiento de las leishmaniasis en la Región de las Américas. 2.^a edición. Washington, DC: OPS; 2022. Disponible en: <https://doi.org/10.37774/9789275325032>
4. Burza S, Croft SL, Boelaert M. Leishmaniasis. *Lancet*. 2018;392(10151):951-70. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(18\)31204-2](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(18)31204-2)
5. Carvalho LMV, Pimentel MIF, Conceição-Silva F, Vasconcellos ÉCFE, Valette-Rosalino CM, Lyra MR, et al. Sporotrichoid leishmaniasis: a cross-sectional clinical, epidemiological and laboratory study in Rio de Janeiro State, Brazil. *Rev Inst Med Trop Sao Paulo*. 2017;59:e33. <https://doi.org/10.1590/S1678-9946201759033>
6. Agudelo SP, Restrepo S, Vélez ID. Cutaneous New World leishmaniasis-sporotrichosis coinfection: report of 3 cases. *J Am Acad Dermatol*. 1999;40(6 Pt 1):1002-4. [https://doi.org/10.1016/s0190-9622\(99\)70093-9](https://doi.org/10.1016/s0190-9622(99)70093-9)
7. Rubio G, Sánchez G, Porras L, Alvarado Z. Esporotricosis: prevalencia, perfil clínico y epidemiológico en un centro de referencia en Colombia. *Rev Iberoam Micol*. 2010;27(2):75-9. <https://doi.org/10.1016/j.riam.2010.01.001>
8. Orofino-Costa R, Macedo PM, Rodrigues AM, Bernardes-Engemann AR. Sporotrichosis: an update on epidemiology, etiopathogenesis, laboratory and clinical therapeutics. *An Bras Dermatol*. 2017;92(5):606-20. <https://doi.org/10.1590/abd1806-4841.2017279>
9. Zhang YQ, Xu XG, Zhang M, Jiang P, Zhou XY, Li ZZ, et al. Sporotrichosis: clinical and histopathological manifestations. *Am J Dermatopathol*. 2011;33(3):296-302. <https://doi.org/10.1097/DAD.0b013e3181f5b622>
10. Macías P, Ordóñez J, Arenas CM, Rodríguez G. An 18-year-old man with tropical verrucous syndrome: Leishmaniasis or sporotrichosis? *Biomedica*. 2021;41(2):240-6. <https://doi.org/10.7705/biomedica.5757>