

## Caso clínico

# Leishmaniasis mucocutánea labial, las apariencias pueden engañar

Andrea Estébanez Corrales<sup>a\*</sup>, Jorge Torres Gaya<sup>b</sup>, José María Martín Hernández<sup>a</sup> y Miguel Puche Torres<sup>b</sup>

<sup>a</sup>Servicio de Dermatología, Hospital Clínico Universitario de Valencia, Universidad de Valencia, España <sup>b</sup>Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital Clínico Universitario de Valencia, Universidad de Valencia, España

### INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 18 de septiembre de 2018

Aceptado el 15 de febrero de 2019

Palabras clave:

Leishmaniasis mucocutánea,  
antimoniato de meglumina,  
miltefosina.

Keywords:

Mucocutaneous leishmaniasis,  
meglumine antimoniate,  
miltefosine.

### R E S U M E N

La leishmaniasis es una infección endémica en nuestro medio. Dentro de sus presentaciones, la forma mucocutánea es la menos frecuente. A pesar de ello se ha de tener en cuenta incluso en casos clínicamente sugestivos de patología tumoral, como el que presentamos.

### Mucocutaneous lip leishmaniasis, a diagnostic challenge

### A B S T R A C T

Leishmaniasis is an endemic disease in the mediterranean region. Although mucocutaneous presentation is not frequent, we should considerate it in the differential diagnosis of tumoral pathology.

\*Autor para correspondencia:

Correo electrónico: [andreaestebanez\\_7@hotmail.com](mailto:andreaestebanez_7@hotmail.com) (Andrea Estébanez Corrales).

DOI: [10.20986/recom.2019.1050/2019](https://doi.org/10.20986/recom.2019.1050/2019)

1130-0558/© 2019 SECOM. Publicado por Inspira Network. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

## INTRODUCCIÓN

La leishmaniasis es una infección producida por distintas especies del género *Leishmania*; en España por *L. infantum* de forma predominante. Hay tres formas básicas de presentación: cutánea (localizada o difusa), mucocutánea o espundia y visceral o *kala-azar*. El reservorio habitual son los roedores y perros, y el vector es la hembra del insecto *Phlebotomus*. Es una enfermedad de declaración obligatoria (EDO) en solo 40 países del mundo, con una incidencia anual estimada de dos millones de casos, de los que solo se declaran el 25 %. En nuestro país fue una EDO hasta 1996, siendo desde entonces una enfermedad de notificación regional solo registrada en algunas comunidades autónomas. Dentro de las comunidades más afectadas se encuentran Aragón, Baleares, Cataluña y Valencia<sup>1</sup>.

Tras la picadura del insecto aparece una pápula indurada que dos semanas después se ulcera, con bordes sobreelevados y costra central (botón de Oriente). Sin tratamiento, casi el 15 % de los casos evolucionan a leishmaniasis mucocutánea, con posibles lesiones extensas destructivas en la mucosa nasal, oral y faríngea<sup>2</sup>. A pesar de que la forma mucocutánea es muy poco frecuente, se ha de tener en cuenta incluso en casos clínicamente sugestivos de patología tumoral, como el que presentamos.

## CASO CLÍNICO

Un varón de 46 años, fumador, con antecedentes de diabetes e hipertensión en tratamiento con irbesartán/hidroclorotiazida y metformina/vidagliptina, fue remitido a urgencias de Dermatología por una lesión en la comisura labial derecha de 6 meses de evolución, con crecimiento progresivo. Había recibido tratamiento con antifúngicos tópicos ante la sospecha de queilitis angular, sin mejoría alguna.

En la exploración física se apreciaba una lesión nodular palpable de 2x2 cm en la comisura bucal derecha, con edema adyacente y ulceración en la mucosa superficial (Figura 1). No se palpaban adenopatías locorregionales. Ante la sospecha de carcinoma epidermoide, se remitió al Servicio de Cirugía Maxilofacial para la realización de una biopsia, y se solicitó una resonancia magnética (RM) locorregional.

En la RM se apreciaba un engrosamiento de partes blandas difuso, predominante en la encía y la mucosa yugal derechas, de aproximadamente 2 cm de diámetro y que se extendía hasta la piel y el tejido subcutáneo, sin adenopatías patológicas.

En la biopsia se observaba un denso infiltrado dérmico consistente en linfocitos, histiocitos y células plasmáticas, destacando múltiples amastigotes intracelulares, compatibles con leishmaniasis mucocutánea (Figura 2).

Tras el diagnóstico de leishmaniasis mucocutánea se reintegró al paciente, quien refirió haber sufrido múltiples picaduras a consecuencia de su profesión (agricultor). Se solicitó una analítica completa además de serologías y ecografía abdominal. En la analítica solo destacaba hipercolesterolemia e hipertrigliceridemia. Las serologías para VIH, sífilis y hepatitis fueron negativas y la de leishmania resultó positiva a títulos altos. La ecografía abdominal no mostraba ningún hallazgo significativo.

Tras descartar que hubiese compromiso sistémico, se decidió iniciar tratamiento con antimonio de meglumina intralesional 0,6 ml cada 3 semanas, con un total de tres infiltraciones, a lo que se asoció miltefosina oral 150 mg al día durante 28 días, con resolución completa de las lesiones.

## DISCUSIÓN

Existen publicaciones que describen la leishmaniasis del labio superior con unas características clínicas solapables a este caso: tumefacción del labio generalmente asintomática, con posible ulceración y aspecto nodular<sup>3,4</sup>.

Para el diagnóstico de sospecha es fundamental la exploración física y los antecedentes epidemiológicos tales como la profesión o viajes.

La confirmación requiere la realización de una biopsia, en la que histológicamente se pueden apreciar numerosos amastigotes intracelulares. En otros casos el diagnóstico se realizará mediante la reacción en cadena de la polimerasa (PCR), siendo posible en algunos centros la tipificación de la especie de leishmania implicada, lo que puede ser especialmente útil en casos importados o resistentes al tratamiento. Es importante que, ante la biopsia de una lesión con sospecha clínica de leishmania, no solo se realice un estudio histológico de la pieza sino también una PCR, ya que en casos de curso crónico se puede apreciar una dermatitis granulomatosa con ausencia



Figura 1. Lesión nodular palpable de 2 x 2 cm en la comisura bucal derecha con edema adyacente y ulceración en mucosa superficial.

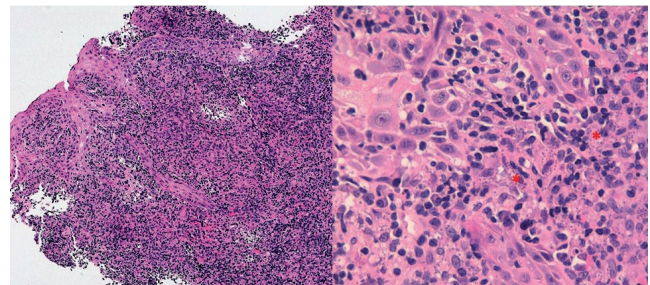


Figura 2. Izquierda: infiltrado inflamatorio dérmico (HE x 10). Derecha: a mayor detalle se aprecian los amastigotes intracelulares (\*) (HE x 40).

de amastigotes. La serología es una técnica poco sensible y específica en la leishmaniasis cutánea o mucocutánea, que puede persistir positiva tras un primer contagio, por lo que tiene un papel muy limitado para el diagnóstico<sup>1</sup>.

El diagnóstico diferencial es amplio: infecciones bacterianas, queilitis granulomatosa, síndrome de Melkersson-Rosenthal, granuloma a cuerpo extraño, linfoma o carcinoma epidermoide, entre otros. Clínicamente, la leishmaniasis mucocutánea no suele presentar hallazgos distintivos, por lo que la aparición de lesiones en pacientes no fumadores, expuestos a múltiples picaduras, en regiones endémicas como la cuenca mediterránea y con una evolución poco propia de un carcinoma epidermoide, debería hacernos sospechar entidades infecciosas y solicitar un cultivo de biopsia y una PCR de leishmania.

El tratamiento de la leishmaniasis cutánea localizada (menos de cinco lesiones) es la cirugía, el empleo de antimonio de meglumina intralesional en pauta variable (0,2-1 ml por lesión, semanal, quincenal o mensual) o la crioterapia<sup>1</sup>. En cuanto a los casos diseminados existe mayor discrepancia. En la leishmaniasis mucocutánea se ha empleado anfotericina B liposomal intravenosa, antimonio de meglumina intramuscular, intravenoso e intralesional, y miltefosina oral<sup>5-7</sup>. En los últimos ensayos clínicos se compara el tratamiento intravenoso y la miltefosina oral, con resultados similares y menos efectos secundarios con esta última opción<sup>8</sup>. Los efectos secundarios más frecuentes en el tratamiento con miltefosina son las náuseas, la anorexia y las alteraciones gastrointestinales. Se requiere la monitorización de enzimas pancreáticas, función hepática y renal, siendo un tratamiento contraindicado durante el embarazo y hasta 3 meses después<sup>9</sup>. En este caso se inició tratamiento con antimonio de meglumina intralesional. Tras dos infiltraciones de 0,6 ml espaciadas 3 semanas y no haber apenas respuesta, se añadió miltefosina oral 150 mg al día durante 28 días y se realizó una infiltración más, con lo que se obtuvo muy buena respuesta clínica, con desaparición de las lesiones y sin signos de recidiva varios meses después de la finalización del tratamiento.

En conclusión, en el diagnóstico diferencial de lesiones mucocutáneas de evolución tórpida hemos de considerar la etiología infecciosa y especialmente la leishmaniasis en la cuenca mediterránea. La sospecha diagnóstica ayudará a solicitar las pruebas complementarias oportunas y a evitar intervenciones quirúrgicas innecesarias.

## B I B L I O G R A F Í A

1. García-Almagro D. Leishmaniasis cutánea. *Actas Dermosifiliogr.* 2005;96(1):1-24. DOI: 10.1016/S0001-7310(05)73027-1.
2. González Sánchez M. Leishmaniasis mucocutánea: una enfermedad importada con repercusión en ORL. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2009;60(4):298-300. DOI: 10.1016/j.otorri.2009.01.006.
3. Veraldi S, Bottini S, Persico MC. Case report: leishmaniasis of the upper lip. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2007;104(5):659-61. DOI: 10.1016/j.tripleo.2007.02.014.
4. Gurel MS, Ulukanligil M, Ozbilge H. Cutaneous leishmaniasis in Sanliurfa: epidemiologic and clinical features of the last four years (1997-2000). *Int J Dermatol.* 2002;41(1):32-7. DOI: 10.1046/j.0011-9059.2001.01396.x.
5. Neub A, Krahl D, Stich A, Amon U. Cutaneous infection with *Leishmania infantum* in an infant treated successfully with miltefosine. *J Dtsch Dermatol Ges.* 2008;6(12):1061-4. DOI: 10.1111/j.1610-0387.2008.06779.x.
6. Keynan Y, Larios OE, Wiseman MC, Plourde M, Ouellette M, Rubinstein E. Use of oral miltefosine for cutaneous leishmaniasis in Canadian soldiers returning from Afghanistan. *Can J Infect Dis Med Microbiol.* 2008;19(6):394-6. DOI: 10.1155/2008/802710.
7. Soto J, Toledo J, Valda L, Balderrama M, Rea I, Parra R, et al. Treatment of Bolivian mucosal leishmaniasis with miltefosine. *Clin Infect Dis.* 2007;44(3):350-6. DOI: 10.1086/510588.
8. Mohebbali M, Fotouhi A, Hooshmand B, Zarei Z, Akhouni B, Rahnama A, et al. Comparison of miltefosine and meglumine antimoniate for the treatment of zoonotic cutaneous leishmaniasis (ZCL) by a randomized clinical trial in Iran. *Acta Trop.* 2007;103(1):33-40. DOI: 10.1016/j.actatropica.2007.05.005.
9. Monge-Maillou B, López-Vélez R. Miltefosine for visceral and cutaneous leishmaniasis: Drug characteristics and evidence-based treatment recommendations. *Clin Infect Dis.* 2015;60(9):1398-404. DOI: 10.1093/cid/civ004.