

Paracoccidiomicosis linfangítica primaria

Primary lymphangitic paracoccidiomycosis

Tomás Noel Santana Téllez^{1,2*} <https://orcid.org/0000-0002-8893-5489>

Arturo Rafael Heredia^{1,2} <https://orcid.org/0000-0001-7461-0176>

Tony Tominaga García¹ <https://orcid.org/0000-0001-6874-6261>

¹Hospital II EsSalud Pucallpa. Perú.

²Facultad de Medicina Humana de la Universidad Nacional de Ucayali. Perú.

* Autor para la correspondencia: tstcuba2013@yahoo.es

RESUMEN

Introducción: La paracoccidiomicosis o blastomicosis sudamericana es la más prevalente de las micosis profundas en Sudamérica, es la mucosa oral y los pulmones las localizaciones mayormente reportadas.

Objetivo: Presentar un caso clínico con diagnóstico de paracoccidiomicosis ganglionar primaria.

Presentación de caso: Adolescente, inmunocompetente, con adenomegalias cervicales y supraclavicular izquierda de 15 días de evolución, con pérdida de peso e historia de viaje transitorio a zona endémica. El estudio histopatológico evidenció la presencia de blastosporas de doble contorno multiplegemada, en forma de “timón de barco”. El tratamiento con itraconazol, la respuesta fue favorable, con remisión completa de la sintomatología.

Conclusiones: La paciente presentó las características clínicas, epidemiológicas e histopatológicas, que se consideran diagnósticas de esta enfermedad; su novedad radica en que la paciente fue diagnosticada en un área no endémica, con historia de viaje a un área endémica dos años antes de la aparición de las manifestaciones clínicas.

Palabras clave: paracoccidiomicosis; blastomicosis sudamericana; blastomicosis brasiliensis.

ABSTRACT

Introduction: Paracoccidiomycosis or South American blastomycosis is the most prevalent deep mycoses in South America, the oral mucosa and lungs are the most commonly reported locations.

Objective: To report a clinical case with diagnosis of primary nodal paracoccidiomycosis.

Case report: We report the case of an immunocompetent adolescent with cervical and left supraclavicular lymph nodes of 15 days of evolution, she had weight loss and history of temporary travel to an endemic area. The histopathological study evidenced the presence of blastospores with double contour, multiple gemmed, in the shape of a boat rudder. After the

treatment with itraconazole, the response was favorable, with complete remission of symptoms.

Conclusions: The patient had the clinical, epidemiological and histopathological characteristics considered diagnostic of this disease; the novelty lies in the fact that the patient was diagnosed in a non-endemic area, with a history of travel to an endemic area two years before the appearance of clinical manifestations.

Keywords: paracoccidioidomycosis; South American blastomycosis; blastomycosis brasiliensis.

Recibido: 13/04/2021

Aceptado: 31/07/2021

Introducción

La paracoccidioidomycosis, conocida como blastomycosis sudamericana, es una infección micótica profunda, causada por el hongo paracoccidioides brasiliensis. Su historia data de 1908, cuando *Adolfo Lutz*, describió las lesiones cutáneas y cultivó el hongo, con la posterior publicación por Splendore, en 1912, de una gran serie de casos similares, individualizó así esta micosis. Ya en 1928, *Almeida y Lacaz*, designaron al hongo como paracoccidioides brasiliensis.⁽¹⁾

La enfermedad tiene mayor incidencia en la población adulta (entre los 30 y 60 años de edad), del sexo masculino, cuyo espectro clínico depende de las características inmunológicas del paciente. La forma de presentación crónica es más frecuente en adultos y en edad pediátrica la aguda/subaguda, es más frecuentes; en ellos puede observarse compromiso tanto de ganglios linfáticos como hepatoesplénico, llega a causar disfunción de médula ósea.⁽²⁾

En Perú, la enfermedad se reporta en regiones de selva baja amazónica y ceja de selva, donde el clima tropical permite la supervivencia de la vida saprofítica del paracoccidioides brasiliensis, considerada infectante.⁽³⁾

El estudio tuvo el objetivo de reportar el caso de una adolescente con diagnóstico de paracoccidioidomycosis linfangítica primaria, estudiante, con historia personal de viaje transitorio a una zona endémica, con período de latencia prolongado. Se muestra la evolución clínica, la confirmación auxiliar y además se complementa con la revisión de la literatura.

Presentación del caso

Adolescente de 16 años de edad, femenina, residente en la ciudad de Pucallpa (Perú), aparentemente sana hasta la fecha de atención, inmunocompetente y con esquema de vacunación completo.

Acudió a consulta por presentar adenomegalias a nivel cervical (bilateral) y supraclavicular izquierda de curso progresivo, dolorosas a los movimientos cervicales, de aproximadamente

15 días de evolución. A este cuadro se le asoció astenia moderada y pérdida de peso de aproximadamente 5 kg en los últimos dos meses. La paciente visitó las ciudades de Huánuco y Tingo María dos años antes del inicio de los síntomas.

El examen físico mostró una paciente delgada (IMC 18,7 Kg/m² SC), con palidez cutáneomucosa, sin lesiones mucocutáneas, ni hallazgos cardiorrespiratorios. La cavidad orofaríngea no mostró exudados, paradentosis, adentia ni lesiones ulceradas (Fig 1).



Fig. 1- Ausencia de lesiones orales.

Al examen linfoganglionar presentaba conglomerado adenopático cervical (bilateral) y supraclavicular izquierdo, de límites bien definidos, elástico, doloroso, móviles, de 3-4 cm de diámetro, sin signos inflamatorios ni fluctuación (Fig. 2).



Fig. 2- Adenomegalias en cuello. Se muestra sitio de exéresis de ganglio supraclavicular izquierdo.

En los exámenes complementarios se halló anemia moderada (hemoglobina 9 g/dL, con recuentos leucocitarios y plaquetarios dentro de límites normales), la lámina periférica mostró microcitosis, hipocromía y anisocitosis. La química sanguínea sin alteraciones.

En la ecografía de partes blandas del cuello se reporta la presencia paquetes ganglionares en áreas cervicales (bilateral) y supraclavicular izquierda, sin neovascularización. Tanto la ecografía abdominal como el estudio radiológico (huesos largos, tórax postero-anterior y pelvis) fueron normales.

Las pruebas serológicas (VDRL, VIH, virus de hepatitis B y C, virus de *Epstein Barr*, citomegalovirus) fueron negativos. Se constató anticuerpos IgG anti *Toxoplasma gondii*. El aspirado medular no mostró alteraciones.

La biopsia del ganglio supraclavicular izquierdo, con estudio histopatológico con la coloración seccional con PAS, constató la presencia de blastosporas de doble contorno multiplegemada, en forma de “timón de barco”, compatibles con paracoccidiodomicosis. (Fig 3 y 4).

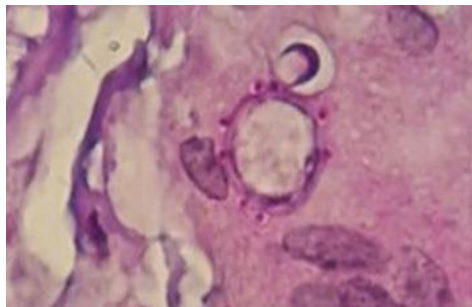


Fig 3 - Estructura micótica en forma de “timón de barco” (coloración de PAS 1000x).

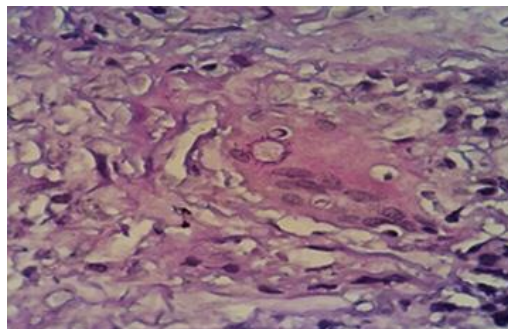


Fig 4 - La misma imagen, más panorámica 400x.

Parte de la muestra de la biopsia ganglionar se envió a laboratorio de microbiología para cultivos. Se realizó además GenXpert, sin constatare micobacterium tuberculosis.

Con ese resultado, se inició tratamiento con itraconazol 400 mg/día por tres meses, con mejoría progresiva de la sintomatología. Completó los seis meses de tratamiento con 100 mg/día de itraconazol, se logró buena respuesta terapéutica, con remisión completa de las adenomegalias y la recuperación del peso previo. Hoy la paciente se encuentra activa socialmente.

Discusión

La paracoccidiodomicosis es una micosis sistémica, granulomatosa, de evolución aguda/subaguda (adolescentes y jóvenes) o crónica (adultos), producida por el hongo dimorfo *paracoccidioides brasiliensis*, cuya prevalencia varía entre 1 y 3 casos por 100 000 habitantes en áreas endémicas. En Latinoamérica la mayor tasa de infección corresponde a

Brasil, alcanza los 30 casos por millón de habitantes, con una mortalidad de 1,4 por millón anualmente.^(4,5)

En Perú, donde la paracoccidiodomicosis es una enfermedad subregistrada por no considerarse de declaración obligatoria, la mayoría de los casos se reportan en la selva baja amazónica y en ceja de selva, áreas donde el clima templado, es propicio para el desarrollo de la forma infectante del paracoccidioides braziliensis.⁽³⁾ Lo cual coincide con la historia epidemiológica de la paciente que hoy reportamos, quien tuvo una efímera estancia en zona endémica, aproximadamente 2 años antes del inicio del cuadro actual, que se corresponde con el período de latencia, reportado hasta de 20 años.⁽⁶⁾

La enfermedad se diagnostica mayormente en la edad adulta, entre 30 - 60 años, con compromiso multifocal, una participación pulmonar de un 90 % de los casos reportados, seguido de la presentación mucocutánea y de la ganglionar. En niños y en adolescentes, se presentan como un síndrome linfoproliferativo febril, con predominio de linfadenopatías y hepatoesplenomegalia. Esta apreciación se corresponde con la clasificación de *Connant*, se consideran cuatro formas clínicas, mucocutánea, linfangítica, visceral y tipo mixto.⁽⁷⁾

En adultos predomina en el sexo masculino, con una relación aproximada 1,5-9:1, en correspondencia a la descripción de cierta protección para mujeres en edad fértil por la presencia de un receptor, el 17 b-estradiol, que al interactuar con su hormona impide la transformación del hongo a su forma levaduriforme, considerada forma parasitaria.⁽⁸⁾

El estado inmune del paciente, establece el espectro de gravedad, en un extremo el polo hiperérgico, donde la inmunidad celular está preservada, y el paciente desarrolla una enfermedad leve, muchas veces autolimitado o con progresión hacia la cronicidad; en el otro extremo se sitúa un polo anérgico, con inmunocompromiso, mucho más grave y rápidamente progresivo. La ausencia de consumo de terapia inmunosupresora, quimioterapia, padecimiento de tumor sólido o VIH positivo, en conjunto con la presencia de recuento absoluto de linfocitos y cifras normales de albúmina que se obtuvieron en la paciente, brinda los elementos mínimos de una adecuada inmunidad (inmunocompetencia).⁽⁹⁾

Para el diagnóstico de la paracoccidiodomicosis son considerados imprescindibles: el estudio micológico, que muestra una sensibilidad entre el 85 - 100 %, el estudio histopatológico, la detección de anticuerpos específicos y el cultivo (debe realizarse bajo medidas de bioseguridad en laboratorios con las condiciones requeridas).⁽¹⁰⁾ La presencia de estructuras micóticas con doble contorno, multiplegemada, en forma de “timón o rueda de barco” definen el diagnóstico. *Dawaher* y otros⁽¹¹⁾ encontraron un 96,92 % de casos positivos en el estudio histopatológico y 87 % en el estudio directo.

El tratamiento de elección es el itraconazol por un período largo de tiempo, con anfotericina B y sulfonamidas como posibles alternativas. Se considera respuesta favorable al tratamiento la desaparición temprana de la sintomatología (primeros meses), la desaparición del hongo, la estabilización de las imágenes en radiografías (evaluación de tres meses consecutivos) y criterio inmunológico.⁽¹²⁾

La paciente reportada cumple con las características clínicas, epidemiológicas e histopatológicas, que permiten considerarse diagnósticas de esta enfermedad; su novedad

radica en que la paciente ha sido diagnosticada en un área no endémica, con historia de viaje a un área endémica dos años antes de la aparición de las manifestaciones clínicas.

Referencias bibliográficas

1. Sinkos C, Grillo TG, Bonini ACM, Cardoso LG, Watanabe EM, Cavalcante R de S, *et al.* Mixed and disseminated paracoccidioidomycosis after liver transplantation: Case report. *Med Mycol Case Rep.* 2021 [acceso: 08/07/2021];32:25-9. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov>
2. Ureta Fernández LE, Ordoñez J, Lequini Pechi N, Acuña Zuñiga AM, Perendones Paseyro M. Paracoccidioidomycosis: reporte de un caso clínico. *Rev Urug Med Int.* 2019 [acceso: 08/07/2021];4(3):43-51. Disponible en: http://www.scielo.edu.uy/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S2393-67972019000300043&lng=es.
3. Burstein Alva Z. Aspectos clínicos de la Blastomycosis sudamericana (Paracoccidioidomycosis) en el Perú. *Rev. Perú Med Exp Salud Pública.* 2002 [acceso: 14/06/2021];19(1):43-7. Disponible en: http://www.scielo.org.pe/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1726-46342002000100009&lng=es.
4. Alcántara Figueroa C, Verástegui R, Aphanh Lam M, Cáceres Alpaca D. Colon Paracoccidioidomycosis in a hospital from Lima - Perú: report of 4 cases. *Rev Gastroenterol Perú.* 2017 [acceso: 14/06/2021];37(1):77-81. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov>
5. Canteros CE. Paracoccidioidomycosis: chronicle of a neglected disease. *Medicina (B Aires).* 2018 [acceso: 14/06/2021];78(3):180-4. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov>
6. Fernández Quiroga C, Candiz ME, Mazzaroni S, Olivares L, Maronna E. Paracoccidioidomycosis asociada a leishmaniasis. *Dermatol. Argent.* 2019 [acceso: 14/06/2021];25(3):125-7. Disponible en: <https://www.dermatolarg.org.ar/index.php/dermatolarg/index>
7. Shikanai-Yasuda MA, Mendes RP, Colombo AL, Telles F de Q, Kono A, Paniago AMM, *et al.* Brazilian guidelines for the clinical management of paracoccidioidomycosis. *Epidemiol Serv Saude.* 2018 [acceso: 14/06/2021];27(spe):e0500001. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov>
8. Morón Guglielmino C, Ivanov ML, Vereá MA, Pecotche D. Paracoccidioidomycosis. Presentación de la casuística de diez años revisión de la literatura. *Arch Argent Dermatol.* 2012;62:92-7.
9. Peçanha-Pietrobon PM, Falqueto A, Rodríguez Gandarella AD, Moyzés JV, Rangel KA, Miranda LB, *et al.* Case report: Paracoccidioidomycosis in solid organ transplantation: Disseminated disease in a liver recipient and literature review. *Am J Trop Med Hyg.* 2019;101(5):1100-6. DOI: [10.4269/ajtmh.18-1008](https://doi.org/10.4269/ajtmh.18-1008)
10. Milner DA. *Diagnostic pathology: Infectious diseases* E-book. 2a ed. Elsevier; 2019.

11. Dawaher J, Colella María T, Roselló A, Pérez C, Olaizola C, Newman W *et al.* Paracoccidioidomicosis: clínica, epidemiología y tratamiento. *Kasmera*. 2012 [acceso: 14/06/2021];40(2):161-71. Disponible en: http://ve.scielo.org/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0075-52222012000200006&lng=es.
12. Quindós G. Epidemiología de las micosis invasoras: un paisaje en continuo cambio. *Rev. Iberoam Micol*. 2018;35(4):171-8. DOI: [10.2016/j.riam.2018.07.002](https://doi.org/10.2016/j.riam.2018.07.002)

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

Financiación

Los autores autofinanciaron el proyecto de investigación “Paracoccidioidomicosis linfagítica primaria” afiliados al Hospital II EsSalud Pucallpa y Facultad de Medicina Humana de la Universidad Nacional de Ucayali. Perú.