

Úlcera lingual asociada a paracoccidioidomicosis pulmonar

Lingual ulcer as a manifestation of systemic paracoccidioidomycosis. Case report

Raúl Montalvo¹, David Rodríguez-Mori² y Gabriela Fredes-Pasaca³

¹Facultad de Medicina Humana, Universidad Nacional del Centro del Perú.

²Escuela de Medicina, Universidad Nacional de Trujillo. Trujillo, Perú.

³Escuela de Medicina, Universidad Nacional de San Agustín. Arequipa, Perú.

Los autores declaramos no tener ningún tipo de conflicto de interés.
Sin financiamiento externo

Recibido: 13 de septiembre de 2019 / Aceptado: 1 de junio de 2020

Resumen

La paracoccidioidomicosis (PCM) es una enfermedad fúngica sistémica que puede invadir cualquier órgano. Es de alta mortalidad si no es diagnosticado oportunamente. Presentamos el caso de un varón de ocupación agricultor, con antecedente de diabetes mellitus, que desarrolló inicialmente una úlcera lingual y posteriormente, una neumonía y *shock* séptico, sin respuesta al tratamiento antituberculoso y antibacteriano. El frotis de la secreción bronquial permitió evidenciar las levaduras en gemación múltiple, compatible con una PCM. Tuvo una respuesta satisfactoria a la administración de anfotericina B deoxicolato.

Palabras clave: paracoccidioidomicosis; *Paracoccidioides brasiliensis*; úlcera mucocutánea.

Abstract

Paracoccidioidomycosis is a fungal disease of systemic involvement that can invade any organ and is of high mortality if it is not diagnosed in a timely manner. We present the case of a farmer male with a history of diabetes mellitus, who previously develops lingual ulcers and subsequently presents severe lung disease associated with septic shock, without response to antituberculous and antibacterial treatment. The bronchial secretion smear shows evidence of yeasts in multiple budding, compatible with Paracoccidioidomycosis. The patient had a satisfactory recovery to the administration of amphotericin B deoxycholate.

Keywords: paracoccidioidomycosis; *Paracoccidioides brasiliensis*; mucocutaneous ulcer; tongue.

Introducción

La paracoccidioidomicosis (PCM) es una enfermedad fúngica, de presentación clínica variada e inespecífica. Cuando afecta la mucosa oral, las manifestaciones más frecuentes son lesiones granulomatosas que puede afectar la mucosa oral, paladar, faringe y laringe¹. Estas lesiones pueden terminar en fibrosis conduciendo a alteraciones anatómicas y funcionales². Sin embargo, algunas manifestaciones son atípicas, como la úlcera lingual única que puede imitar a una histoplasmosis³, cáncer de células escamosas⁴, leishmaniasis⁵ y tuberculosis (TBC)⁶.

El diagnóstico de una PCM se basa en la detección de elementos fúngicos de *Paracoccidioides brasiliensis* en el examen histopatológico de la biopsia, teñido con hematoxilina-eosina⁷ y en el cultivo

micológico del tejido afectado. Estos métodos suelen tardar varios días, siendo un problema dada la necesidad de realizar un diagnóstico urgente en pacientes críticos.

Se presenta el caso clínico de un varón de 67 años con una úlcera lingual que evolucionó con una neumonía grave e insuficiencia respiratoria. Se diagnosticó posteriormente una PCM por el estudio directo del aspirado bronquial.

Caso clínico

Varón de 67 años de edad, procedente de Chanchamayo (selva central del Perú), de ocupación agricultor. Tenía antecedente de diabetes mellitus desde hacía tres años, en tratamiento con metformina 850 mg

Correspondencia a:

Raúl Montalvo Otivo
motivo3@gmail.com

diario. Además, refirió que su hermano había fallecido de una TBC pulmonar cinco años atrás.

Tenía una historia de tres meses de evolución de una lesión papular en el extremo distal de la lengua de 0,5 cm de diámetro. Posteriormente, progresó a una úlcera eritematosa, de bordes duros, elevados, poco dolorosa, con pérdida de algunas piezas dentarias (Figura 1a). Acudió a emergencia del hospital por una disnea progresiva a pequeños esfuerzos, asociado a tos seca, y posteriormente con expectoración. Durante su evaluación el paciente reportó una baja de peso de 5 kg y debilidad muscular.

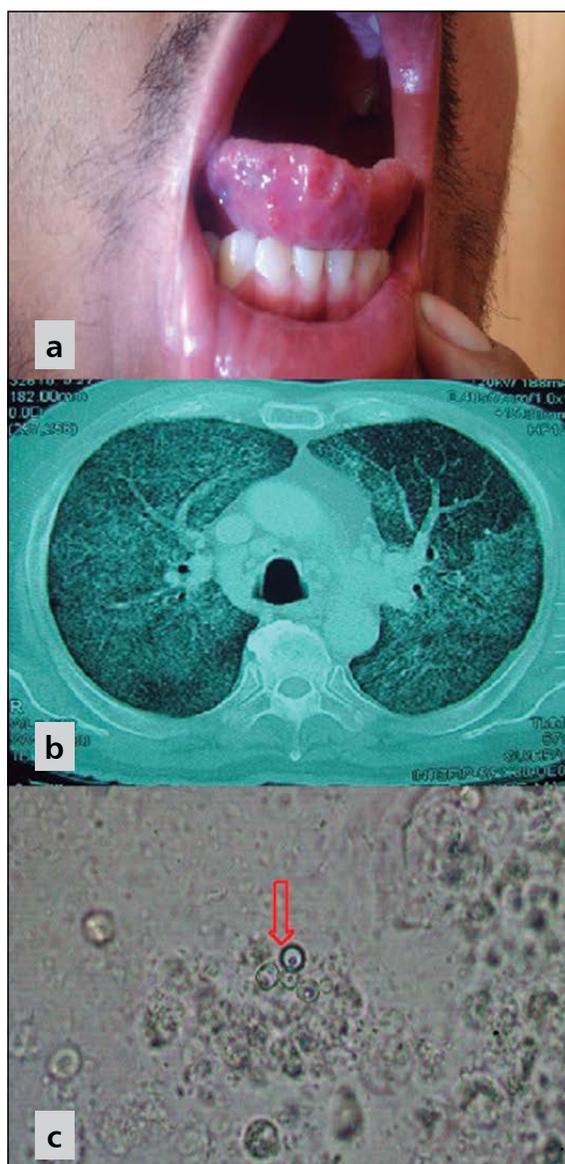
Los signos vitales al ingreso fueron: presión arterial 80/50 mmHg, temperatura 37,4 °C, pulso: 100 por min;

frecuencia respiratoria: 32 por min. Al examen pulmonar presentaba crépitos y roncus difusos en ambas bases del pulmón. La tomografía computarizada (TC) de tórax mostró áreas de vidrio esmerilado, con un patrón micronodular bilateral que respetaba el segmento apical izquierdo, con focos de panalización en ambos campos pulmonares y adenopatías mediastinales (Figura 1b). Por la gravedad del cuadro clínico, se conectó a ventilación mecánica. La toma de muestras por fibrobroncoscopia fue suspendida por la inestabilidad hemodinámica.

Se lograron realizar baciloscopías de secreción bronquial, las que fueron negativas. Aun así, se inició tratamiento antituberculoso por la fuerte sospecha de una TBC miliar, dado el antecedente epidemiológico de un contacto familiar con TBC. Además, se le suministró meropenem, vancomicina IV y noradrenalina.

Dada la mala evolución clínica y para completar el estudio microbiológico, se realizó un aspirado bronquial para la búsqueda de levaduras, evidenciándose en el examen micológico directo levaduras en gemación múltiple compatible con PCM (Figura 1c). Se inició anfotericina B deoxicolato 40 mg (0,5 mg/kg) en infusión intravenosa y se suspendió el tratamiento antituberculoso.

El paciente presentó mejoría clínica, cicatrización de la úlcera lingual y fue dado de alta hospitalaria luego de 20 días, continuando tratamiento con itraconazol oral.



Discusión

En el caso clínico aquí presentado, la manifestación inicial de la PCM fue la presencia de una lesión papular que posteriormente evolucionó a una úlcera lingual. La forma más frecuente de PCM oral son las lesiones granulomatosas con hiperplasia eritematosa y zonas hemorrágicas (clásico aspecto de piel de fresa o “estomatitis moriforme de Aguiar-Pupo”), y afecta generalmente los labios, encías y mucosa bucal⁸. La presentación con úlceras linguales es poco frecuente. La causa de si la glositis local favorece el desarrollo de la micosis lingual después de la inoculación local, si es por reactivación lingual de un foco infeccioso latente o por diseminación durante una infección pulmonar activa, está todavía en debate⁹.

El espectro clínico de la PCM pulmonar no presenta características clínicas específicas, dificultando el diagnóstico. Los síntomas y signos son principalmente constitucionales, siendo los más comunes la baja de peso, tos productiva, disnea progresiva y fiebre. Esporádicamente, se presenta como una sepsis fúngica en pacientes con enfermedades inmunosupresoras, como la infección por VIH y la diabetes mellitus, las que favorecen la diseminación sistémica de la enfermedad^{10,11}.

El uso de estudios complementarios de imagenología, que incluye la TC, son importantes en el diagnóstico de

Figura 1.

la PCM pulmonar. En la TC pulmonar los principales signos sugerentes de micosis son la presencia de lesiones micronodulares difusas, que suelen respetar algunos segmentos pulmonares, el patrón de vidrio esmerilado y la presencia de ganglios linfáticos mediastinales y perihiliares¹². El diagnóstico diferencial más importante que debe ser considerado es la histoplasmosis, la TBC miliar y el linfoma pulmonar con diseminación linfagítica.

El estándar de oro para el diagnóstico definitivo es la identificación de PCM por medio del cultivo micológico o por biología molecular (RPC) del tejido afectado, obtenido por biopsia de la lesión oral o pulmonar. El proceso de las muestras puede tardar varios días; sin embargo, la identificación de levaduras con gemación múltiple en el examen directo del frotis de la lengua, del esputo o de la secreción bronquial, permite el inicio de tratamiento inmediato en pacientes con un cuadro clínico grave¹³. En nuestro caso, la observación directa de las

levaduras en gemación permitió el inicio de anfotericina B deoxicolato, lo que permitió la mejoría clínica del paciente. Este tratamiento es curativo; sin embargo, son factores de mal pronóstico el retardo en el diagnóstico, la existencia de enfermedades asociadas y la diseminación de la enfermedad¹⁴. La PCM lingual, aunque es de escasa ocurrencia, puede exacerbar y complicarse con un compromiso pulmonar.

La PCM constituye un desafío diagnóstico dada la variabilidad e inespecificidad de su presentación. El caso clínico presentado tuvo una mayor dificultad diagnóstica ya que estaba el antecedente familiar de TBC, además de la presentación como una úlcera lingual. De esta manera, es importante la observación directa de levaduras en gemación de la muestra de esputo o secreción bronquial para la sospecha diagnóstica de PCM en un paciente con compromiso oral, disnea, baja de peso y compromiso micronodular en la TC de tórax.

Referencias bibliográficas

- 1.- Fornazieri M A, Yamaguti H Y, Moreira J H, Takemoto L E, Navarro P L, Heshiki R E. Manifestações otorrinolaringológicas mais comuns das doenças granulomatosas. Arch Int Otorhinolaryngol Sao Paulo 2008; 12: 362-5.
- 2.- Costa D C Sd, Palmeiro M R, Moreira J S, Martins A C dC, da Silva A F, Madeira M. Oral manifestations in the American tegumentary leishmaniasis. PLoS One 2014; 9: e109790. doi: 10.1371/journal.pone.0109790.
- 3.- Bissinger A, Biegner T, Frank M, Kremsner P G. Progressive ulcer on the tongue due to local histoplasmosis. Infection 2018; 46: 903-4. doi: 10.1007/s15010-018-1187-4.
- 4.- Pedreira R do P, Guimarães E P, de Carli M L, Magalhães E M, Pereira A A, Hanemann J A. Paracoccidioidomycosis mimicking squamous cell carcinoma on the dorsum of the tongue and review of published literature. Mycopathologia 2014; 177: 325-9. doi:10.1007/s11046-014-9739-3.
- 5.- Vicente C R, Falqueto A. Differentiation of mucosal lesions in mucocutaneous leishmaniasis and paracoccidioidomycosis. PLoS One 2018; 13: e0208208. doi: 10.1371/journal.pone.0208208.
- 6.- De Oliveira Gondak R, Mariano F V, dos Santos Silva A R, Vargas P A, Lopes M A. Single oral paracoccidioidomycosis mimicking other lesions: report of eight cases. Mycopathologia 2012; 173: 47-52. doi: 10.1007/s11046-011-9461-3.
- 7.- López-Martínez R, Hernández-Hernández F, Méndez-Tovar L J, Manzano-Gayosso P, Bonifaz A, Arenas R, et al. Paracoccidioidomycosis in Mexico: clinical and epidemiological data from 93 new cases (1972-2012). Mycoses 2014; 57: 525-30. doi: 10.1111/myc.12190.
- 8.- Almeida O, Jorge J, Scully C. Paracoccidioidomycosis of the mouth: an emerging deep mycosis. Crit Rev Oral Biol Med 2003; 14: 377-83.
- 9.- Brazão-Silva M, Andrade M, Franco T. Paracoccidioidomycosis: a series of 66 patients with oral lesions from an endemic area. Mycoses. 2011; 54: 189-95. doi: 10.1111/j.1439-0507.2010.01873.
- 10.- Caseiro M M, Etzel A, Soares M C B, Costa S O P. Septicemia caused by *Paracoccidioides brasiliensis* as the cause of death of an aids patient from Santos, São Paulo State, Brazil a nonendemic area. Rev Inst Med Trop S Paulo 2005; 47: 209-11. doi: 10.1590/s0036-46652005000400006.
- 11.- Sposto M R, Scully C, de Almeida O P, Jorge J, Graner E, Bozzo L. Oral paracoccidioidomycosis. A study of 36 South American patients. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1993; 75: 461-5. doi:10.1016/0030-4220(93)90171-y
- 12.- Bernardes Filho F, Mendes Queiroz R, Towersey L, Hay R, Valentin M V N. Chronic multifocal paracoccidioidomycosis: pulmonary and cutaneous involvement. J Emerg Med 2018; 55: e57-e60. doi:10.1016/j.jemermed.2018.04.034.
- 13.- Almeida de Arruda J A, Frenzel Schuch L, Guimaraes Abreu L, de Oliveira Silva L V, Mosconi C, Gomes Carneiro J L, et al. A multicentre study of oral paracoccidioidomycosis: analysis of 320 cases and literature review. Oral Dis 2018; 24: 1492-502. doi:10.1111/odi.12925.
- 14.- Shikanai-Yasuda M A, Mendes R P, Colombo A L, Telles F, Kono A, Paniago A M, et al. II Consenso Brasileiro em Paracoccidioidomicose-2017 [Brazilian guidelines for the clinical management of paracoccidioidomycosis]. Epidemiol Serv Saude 2018; 27: e0500001. doi:10.5123/S1679-49742018000500001.