



CASO CLÍNICO

Leishmaniose cutânea recidivante com alterações ósseas — Relato de um caso

Luiz Valda Rodriguez¹, Fernando Cárdenas Uzquiano², Philippe Desjeux³, Samuel W. Calderón Valle⁴.

Resumo

Apresentamos um paciente de sexo masculino, de 23 anos de idade, com lesões ulcerosas de leishmaniose recidivante em membros inferiores. Uma delas localizada no dorso do pé esquerdo, ao nível da região metatarso-falangiana dos últimos artelhos, desenvolveu osteólise do 4.º artelho com lesões osteoporóticas, formações quísticas e acometimento das cartilagens articulares nas estruturas ósseas vizinhas.

Comenta-se a raridade das formas recidivantes e do comprometimento ósseo na leishmaniose e se comparam os relatos da literatura com este primeiro caso observado em nosso país.

Unitermos: leishmaniose cutânea recidivante; alterações ósseas

A leishmaniose, somente superada em importância pela malária, dentro das parasitoses produzidas por protozoários intracelulares, afeta aproximadamente 12 milhões de pessoas em todo o mundo⁽¹⁴⁾. Em nosso país, representa uma das patologias cutâneas mais importantes nas regiões tropicais e subtropicais dos Departamentos de La Paz, Santa Cruz, Beni e Pando, onde se observaram quase a totalidade de formas clínicas da leishmaniose conhecidas em outros lugares.

Desde a primeira descrição de Christopherson (citado por Vilanova⁽¹⁹⁾) em 1923, a leishmaniose cutânea recidivante ou metaleishmaniose, caracterizada pela reaparição de lesões de tipo lupóide sobre uma cicatriz leishmaniótica anterior, foi poucas vezes relatada na literatura. Da mesma maneira, é pouco freqüente o comprometimento ósseo, ao contrário do ataque cartilaginoso que no caso da leishmaniose tegumentar americana, representa, segundo Pessoa e Barreto (citado por Furtado e cols.⁽⁶⁾), 60% da afecção da cartilagem nasal, chegando esta localização a 81% em nosso país⁽³⁾, pelo que se diz que a leishmaniose é uma enfermidade condrófila⁽²⁾. Nós tivemos a oportunidade de observar no Serviço de Dermatologia do Hospital das Clínicas de La Paz — Bolívia, um paciente com leishmaniose cutânea recidivante que desenvolveu alterações ósseas a nível do pé, cuja história passamos a relatar, como contribuição à bibliografia desta importante patologia.

Caso clínico

CV.S., 23 anos de idade, natural da província Los Andes do Altiplano boliviano. Foi internado pela primeira vez no Serviço de Dermatologia do Hospital das Clínicas de La Paz, em 23/11/81, por apresentar uma dermatose que apareceu um ano antes, quando o paciente trabalhava em atividades agrícolas na localidade de San Borja (Beni). Nessa ocasião, ao realizar o exa-

me físico, observamos numerosas lesões úlcero-crostosas de bordas definidas e tamanho variável, disseminadas em membros inferiores, antebraço esquerdo e face direita. A ulceração maior, localizada na região metatarsiana dos últimos artelhos do dorso do pé esquerdo, diferia morfológicamente das anteriores por apresentar numerosas granulações amarelentas na superfície, que lhe davam um aspecto lupóide (Fig. 1); da mesma maneira, a lesão da face direita com grande infiltração de bordas, limitando uma ulceração linear, semelhante a uma goma esporotricóide (Fig. 2). Efetuou-se o estudo histopatológico de biópsias obtidas de pé, perna e face, que mostrou, em todas, uma estrutura granulomatosa tuberculóide compatível com leishmaniose. As intradermorreações com leishmânia e esporotricina foram negativas, e também a investigação de leishmânias por exame direto. Outros exames complementares (hemograma, urina, glicose e fezes) não apresentavam alterações.

Pela procedência do paciente, as características clínicas e o estudo histopatológico compatível, concluímos que se trata de uma leishmaniose cutânea de lesões numerosas e formas clínicas variadas.

Realizou-se o tratamento com Glucantime intramuscular e posteriormente com tártaro emético (devido à falta de Glucantime em nosso país). Com ambos medicamentos, ao final de aproximadamente três meses, obteve-se a desapareção completa de todas as úlceras, deixando em seu lugar, cicatrizes atróficas características de leishmaniose. Somente a lesão do 4.º artelho do pé esquerdo apresentava uma cicatriz retrátil com luxação metatarso-falangiana apreciável, principalmente na radiografia efetuada dias antes de sua alta médica, fato atribuído à retração cicatricial, de acordo com uma avaliação no Serviço de Ortopedia e Traumatologia de nosso Hospital.

Em 15/9/86, o paciente foi internado pe-

¹Professor Assistente de Dermatologia da Fac. de Medicina UMSA, La Paz, Bolívia.

²Professor Titular de Dermatologia da Fac. de Medicina UMSA, La Paz, Bolívia.

³Co-Diretor do Instituto Boliviano de Biología de Altura (IBBA), La Paz, Bolívia.

⁴Residente de 2.º ano. Residência de Dermatologia, Hospital das Clínicas, La Paz, Bolívia.



Fig. 1 - Lesão lupóide úlcero-crostosa do dorso do pé (1981)



Fig. 2 - Leishmaniose esporotricóide do rosto



Fig. 3 - Lesão lupóide úlcero-crostosa recidivante (1986)

la segunda vez em nosso Serviço, ao apresentar, desde alguns meses, recidiva das úlceras sobre algumas cicatrizes de membros inferiores. Durante todo o período anterior, o paciente permaneceu em zonas não endêmicas de leishmaniose. Ao exame, encontramos uma úlcera de aproximadamente 6 x 4cm de diâmetro, de bordas irregulares, ligeiramente infiltradas e de fundo granulomatoso congesto, localizada na região metatarso-falangiana do dorso do 5.º, 4.º e parcialmente 3.º e 2.º artelhos do pé esquerdo (Fig. 3). Na periferia de dita ulceração se observavam áreas de cicatrização antiga e persistência da luxação do 4.º artelho, já notada na primeira internação. Observamos também outras duas úlceras na região do calcanhar esquerdo e região posterior da perna direita (Fig. 4), aparecidas igualmente, sobre antigas cicatrizes. Efetuaram-se os seguintes exames: biópsia de úlceras do pé esquerdo e perna direita, com o seguinte resultado: superfície com escamo-crosta e material de fibrina; a derme profunda mostra infiltração inflamatória polimorfa, com abundantes plasmócitos, linfócitos e histiócitos epitelióides, com tendência a formar granulomas; não se observou nenhum microorganismo. Diagnóstico histopatológico compatível com leishmaniose. Imunofluorescência para leishmaniose positiva a uma diluição de 1/40. Intradermoreação de Montenegro negativa. Inoculação de material biopsiado em hamster, negativa até os 45 dias. Não se efetuou exame direto nem cultura para leishmaniose. Hemograma: Eritrócitos: 4.490.000, Hb 13,5g/dl, Hto 42%, VHS 26mm; Leucócitos 7.900. Exame coproparasitológico, ovos de *E. histolytica*. Exame de urina, uréia, creatinina, bilirrubinas e transaminases normais.

Radiografia do pé esquerdo: Ausência das falanges média e distal, com espícula residual da falange proximal do 4.º artelho, diminuição do diâmetro das falanges proximais do 3.º e 5.º artelhos. Grande osteoporoze das epífises distais do 2.º, 3.º, 4.º e 5.º metatarsianos. Formação de quistos ósseos e comprometimento das cartilagens articulares (Fig. 5).

A avaliação do paciente no Serviço de Traumatologia descartou uma osteomielite ou outro processo, concluindo que se trata de uma lesão óssea do pé produzida provavelmente por leishmaniose. Por negativa do paciente não se pôde realizar exame histopatológico ou outro tipo de exame da lesão óssea. A avaliação do paciente pelo Serviço de Otorrinolaringologia descartou a existência de comprometimento mucoso nasofaríngeo.

Com o diagnóstico de leishmaniose recidivante e comprometimento ósseo, efetuou-se o tratamento com Anfotericina B, via intravenosa, obtendo-se cicatrização completa das lesões do tornozelo esquerdo e perda direita; a ulceração do dorso do pé esquerdo cicatrizou em 90%, persistindo uma marcada retração residual do 4.º artelho do mesmo pé, com alterações ós-

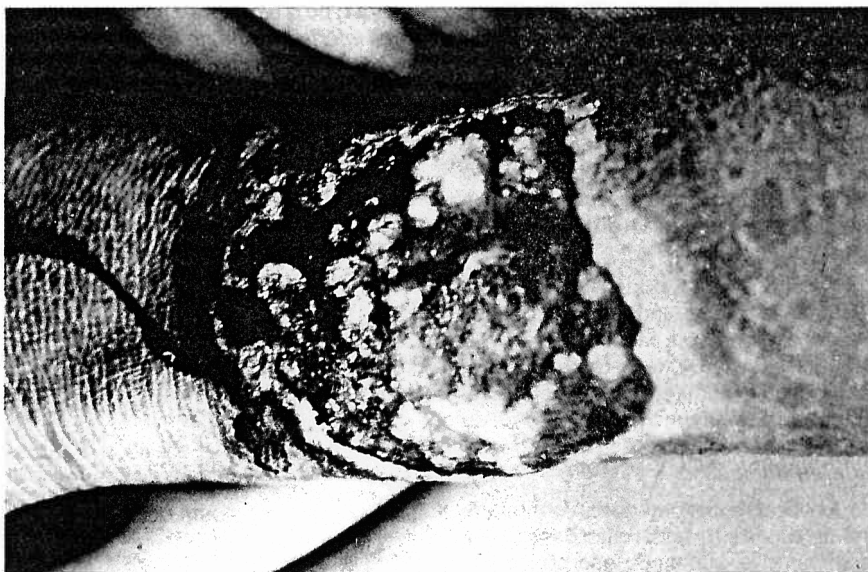


Fig. 4 — Úlcera leishmaniótica recidivante na região posterior da perna direita (1986)



Fig. 5 — Lesões ósseas subjacentes à úlcera leishmaniótica



Fig. 6 — Cicatrização depois de tratamento com anfotericina B (1986)

seas sem modificação radiológica (Fig. 6). O paciente permanece no nosso Serviço sob controle e administração de uma dose prolongada de Anfotericina B, para prevenir-se de uma eventual recidiva de suas lesões no futuro.

Comentários

Consideramos que a presente observação constitui um caso particular de leishmaniose, observado pela primeira vez na Bolívia, no qual nosso paciente é portador, ao mesmo tempo, de numerosas formas da enfermidade, com recidiva de algumas lesões e o comprometimento ósseo localizado, numa delas. Com efeito, pudemos observar na primeira internação, a sucessão de numerosas lesões ulcerosas apresentando três formas clínicas da enfermidade: lupóide a nível do pé, ectimatóide em outras regiões de membros inferiores e esporotricóide na face. Esta associação simultânea de formas clínicas variadas num mesmo paciente, ainda que pouco freqüente, não é excepcional, tal como demonstraram Louvet e cols.⁽¹¹⁾ para o botão do Oriente e Elfren Solano⁽⁴⁾ para a leishmaniose tegumentar americana. No que diz respeito ao caráter recidivante de algumas lesões em nosso paciente, o mesmo corresponde indiscutivelmente à forma recidivante de leishmaniose, denominada também metaleishmaniose, a qual foi relatada infreqüentemente no botão do Oriente e muito menos na leishmaniose tegumentar americana.

Segundo Nicolis e cols.⁽¹⁵⁾ a metaleishmaniose representa de 3 a 10% dos casos de leishmaniose observados na Grécia, entretanto, só a observação de Paes de Oliveira⁽¹⁶⁾ de lesões lupóides reaparecidas quatro anos depois da cicatrização inicial, numa criança de 11 anos, constitui, segundo nosso conhecimento, o primeiro caso americano de metaleishmaniose. Recordemos que a leishmaniose cutânea recidivante está caracterizada por lesões de tipo lupóide, aparecidas sobre, na periferia, ou vizinhas a uma cicatriz leishmaniótica anterior, e que persistem geralmente durante numerosos anos, sendo rebelde a tratamento; assim, 16 anos para o caso de Samij⁽¹⁸⁾, 24 anos para o caso de Hart e cols.⁽⁹⁾ e 31 anos para o caso de Gitelson (citado por Vilanova⁽¹⁹⁾).

Mas este último caso não coincide com nosso caso, cujas lesões de tipo lupóide (variedade úlcero-crostosa) do dorso do pé, reaparecidas cinco anos depois da cicatrização, se resolveram com facilidade com tratamento por alguns meses, com Glucantime na primeira internação e ultimamente com Anfotericina B.

Para explicar a causa da recidiva, Nicolis e cols.⁽¹⁵⁾ e Farah e col.⁽¹⁵⁾ supõem uma reativação de leishmaniose intracelular devido a uma modificação da imunidade local, e Girard e cols.⁽¹⁷⁾ atribuem este fato a uma metástase de origem endógena. Ambas hipóteses ainda não foram confirmadas.

Finalmente, o comprometimento ósseo numa lesão de nosso caso nos leva a ampliar o comentário, devido ao infreqüente acometimento desta estrutura pela leishmaniose. Apesar de não ter sido possível efetuar um exame histológico e isolar leishmânias da lesão óssea, que poderiam certificar a origem parasitária de dita alteração, sua localização subjacente à úlcera cutânea leishmaniótica e a exclusão de outras etiologias de alteração ósteo-articular pelos exames radiográficos, nos levam a supor tal origem em nossa observação.

As lesões ósseas por leishmanioses raramente foram relatadas, tanto no botão do Oriente como na leishmaniose tegumentar americana; assim, Kniffer e Politzer (citados por Rabelo⁽¹⁷⁾) mencionam afinamento das diáfises das falanges com focos extensos de necrose óssea de contornos irregulares e outras alterações em correspondência com o local de lesões de botão do Oriente. Kochs⁽¹⁰⁾, em 1959, relatou uma lesão óssea de tipo periostite e osteíte, subjacente a uma úlcera leishmaniótica da perna de uma mulher árabe; o autor supõe neste caso a presença de um traumatismo prévio na zona de protuberância óssea que explicaria a perda da cortical óssea e o acometimento posterior da esponjosa. Manson-Bahr⁽¹²⁾ ilustra igualmente o caso de uma criança do Irã, que padecia de botão do Oriente com comprometimento mucoso de nariz e boca, que levou à destruição da cartilagem e do osso nasal, semelhante à leishmaniose tegumentar americana.

Na leishmaniose tegumentar americana, foram também relatadas lesões ósseas tipo osteíte e periostite. Assim, Barros e cols.⁽¹⁾ descrevem, em 1953, alterações ósseas de localização naso-facial em correspondência com lesões mucosas, observadas em 11 casos. Costa⁽²⁾, em 1953, relatou também um paciente de 30 anos, com 80 lesões disseminadas de leishmaniose, uma das quais, localizada no dedo indicador esquerdo, chegando a uma dactilite com periostite, permitindo-lhe isolar leishmânias ao exame de líquido obtido por punção da articulação interfalângiana de dito dedo. Casos similares ao deste autor foram também comunicados anteriormente na Argentina por Arias Aranda e cols., e por Mazza e cols. (citados por Furtado e cols.⁽⁶⁾). Em 1957, Guimarães e cols.⁽⁸⁾ informaram

de um caso de lesões ósseas numerosas, com zonas de osteólise e periostite em vários dedos de mãos e pés, independentes das lesões cutâneas. Um ano mais tarde, Furtado e cols.⁽⁶⁾ relataram um paciente de 20 anos de idade, com 32 lesões cutâneas de leishmaniose, algumas acompanhando o trajeto linfático, e que desenvolveu igualmente dactilite múltipla a distância das lesões cutâneas.

Um último caso de lesão óssea por leishmaniose é, segundo nosso conhecimento, o referido por Medina e Lizardo⁽¹³⁾ em 1960, num paciente de 64 anos de idade, no qual a mutilação completa da orelha conduziu também à alteração óssea do ouvido médio e interno, demonstrada por exame radiográfico.

As observações anteriores confirmam, assim, o comprometimento ósseo pela leishmaniose, que ainda que pouco freqüente, põe em discussão o caráter eminentemente "condrófilo" atribuído a esta enfermidade. Com nossa observação, realçamos o polimorfismo clínico da leishmaniose e a importância contínua desta patologia em nossos países.

Summary

Recurring skin leishmaniasis with bone lesions. Report of a case

We report a 23-year-old male patient with multiple ulcerating lesions of recurring leishmaniasis on the lower limbs. One of the lesions was located on the dorsum of the left foot in the metatarsal-phalangeal region of the last digits and he developed osteolysis of the 4th toe with osteoporosis, cysts and involvement of the cartilages of the joints of the surrounding bony structures.

We emphasize the rarity of the recurring types and of the involvement of the bone in leishmaniasis and we compare the reports in the literature with this first case observed in our country.

Uniterns: recurring cutaneous leishmaniasis; bone lesions

Résumé

Présentation d'un cas de leishmaniose récidivante avec lésions osseuses

Il s'agit d'un malade de sexe masculin, de 23 ans, présentant une leishmaniose récidivante, comportant des lésions multi-

ples à type d'ulcères, au niveau des membres inférieurs; une de ces lésions, localisée sur le dos du pied gauche, au niveau de la région metatarso-phalangienne des derniers orteils a provoqué une osteolyse du quatrième orteil, avec des lésions d'osteoporose, des formations kystiques et une atteinte des cartilages articulaires au niveau des structures osseuses voisines.

Les auteurs signalent la rareté dans la leishmaniose des formes récidivantes avec participation osseuse et comparent les cas antérieurement décrits dans la littérature avec ce cas de Bolivie.

Referências

1. BARROS P, LIMA MLMT, CORRÊA A — Alterações sinusais na leishmaniose nasal com estudo radiográfico e histopatológico. *Rev Hosp Clin Fac Med Univ de SP*, 7: 145, 1952.
2. COSTA OG — Dactylitis leishmaniótica. *Arch Argent Dermatol*, 3 (2): 149-153, 1953.
3. DESJEUUX Ph — Leishmaniose cutanée américaine. Étude de 113 cas observés en Bolivie. Thèse (Paris), 1974, 132 pages.
4. ELFREN SOLANO A — Aspectos clínicos de la leishmaniasis en Centro América. *Arch Argent Dermatol*, 24 (1): 6-7, 1974.
5. FARAH FS, MALAK JA — Cutaneous leishmaniasis. *Arch Argent Dermatol*, 103 (5): 476-484, 1971.
6. FURTADO TA, BARROS J — Lesiones óseas en la leishmaniasis tegumentaria americana. *Arch Argent Dermatol*, 8 (4): 279-283, 1958.
7. GIRARD J, BONJEAN M, LESBRE F — Leishmaniose cutanée à recidive tardive. *Bull Soc Fr Derm Syph*, 40: 954-955, 1963.
8. GUIMARÃES NA, SILVA YP — Lesões ósseas da leishmaniose. *An brasil dermat e sif*, 32: 1, 1957.
9. HART M, LIVINGOOD CS, GOLTZ RW, TOTONCHY M — Late cutaneous leishmaniasis. *Arch Argent Dermatol*, 99 (4): 455-458, 1969.
10. KOCHS AG — Sulla partecipazione ossea nella leishmaniasis cutanea. *Minerva Dermatol*, 34 (3): 242-244, 1959.
11. LOUVET M, GUESSOUM M — Leishmaniose cutanée à éléments multiples et polymorphes (à propos d'un cas). *Rev Serv Santé Arm Nat Pop*, 5: 71-72, 1972.
12. MANSON-BAHR PEC — Variations in the clinical manifestations of leishmaniasis caused by L. tropica. *J Trop Med Hyg*, 67 (4): 85-87, 1964.
13. MEDINA R, LIZARDO C — Leishmaniasis de la oreja. *Dermatol Venez*, 2 (1-2): 54-57, 1960.
14. MOSCHELLA SL, HURLEY HJ — *Dermatology*, Second Edition, W.B. Saunders Co., vol. 1, 1985.
15. NICOLIS GD, TOSCA AD, STRATIGOS JD, CAPETANAKIS JA — A clinical and histological study of cutaneous leishmaniasis. *Acta Dermatovener*, 58 (6): 521-525, 1978.
16. PAES DE OLIVEIRA M — Leishmaniasis recidiva cútis. *An bras Dermatol*, 52 (3): 353-359, 1977.
17. RABELLO FE — A leishmaniose tegumentar (Ed. Rabello, 1917) no ciclo morfológico das leishmanioses. Trabalhos dos IV Congressos de Dermatologia Ibero-Latino-Americano e Luso-Espanhol. Portugal, 1959.
18. SAMIIR — Leishmaniose cutanée récidivante à lésions multiples (méta-leishmaniose), datant de 16 ans traitée par glucantime intramusculaire. À propos d'un cas. *Bull Soc Fr Derm Syph*, 78 (3): 262, 1971.
19. VILANOVA X — Leishmaniasis cutánea. Botón de Oriente. Trabalhos dos IV Congressos de Dermatologia Ibero-Latino-Americano e Luso-Espanhol, Portugal, 1959.