

An. Fac. Cienc. Méd. (Asunción) / Vol. 49 - N° 2, 2016

<http://dx.doi.org/10.18004/An.fcm/1816-8949.049.02.069-076>



REPORTE DE CASO

LEPRA LEPROMATOSA PENEAL EN PACIENTE CON ENFERMEDAD DE CHAGAS. REPORTE DE UN CASO

PENILE LEPROMATOUS LEPROSY IN A PATIENT WITH CHAGAS DISEASE. A CASE REPORT.

Zarza P¹, Hong C², Park B³, Molinas G⁴, González MA⁵, Sánchez DF⁵,
Mendoza de Sánchez G⁶, Cubilla AL⁷

¹ Estudiante de 6to curso. Facultad de Ciencias Médicas de la Universidad Nacional de Asunción. Paraguay.

² Estudiante de 6to curso. University High School. Irvine. California.

³ Estudiante de 5to curso. Woodbridge High School. Irvine. California.

⁴ Residente de Neumología. Instituto Nacional de Enfermedades Respiratorias. Asunción. Paraguay.

⁵ Facultad de Ciencias Médicas de la Universidad Nacional de Asunción e Instituto de Patología e Investigación. Paraguay.

⁶ Dermatopatóloga.

⁷ Profesor en Patología. Facultad de Ciencias Médicas de la Universidad Nacional de Asunción e Instituto de Patología e Investigación. Paraguay.

RESUMEN

Se presenta el caso de un paciente masculino de 52 años con fimosis secundaria a una masa pseudotumoral prepucial. El paciente presentaba una historia de enfermedad de Hansen con afectación de piel, laringe y bronquios. Previa a la circuncisión, el examen físico revelaba, además de las alteraciones lepromatosas, un mega esófago secundario a estenosis en la porción distal. El análisis laboratorial mediante la técnica de ELISA dio positivo para *Trypanosoma cruzi*, patógeno responsable de la enfermedad de Chagas. Sólo pudimos encontrar un caso previo reportado de lepra lepromatosa con afectación prepucial. La coexistencia de lepra y miocardiopatía chagásica es inusual pero bien conocida por casos reportados en Brasil e India. Sin embargo, de acuerdo a nuestros conocimientos, éste es el primer caso reportado de una asociación entre lepra lepromatosa y mega esófago chagásico en un paciente con fimosis.

Palabras Clave: Lepra Lepromatosa, Enfermedad de Chagas, Fimosis.

Autor correspondiente: Prof. Dr. Antonio L. Cubilla. Instituto de Patología e Investigación. Calle Capitán Brizuela 325 y Ayala Velázquez. Asunción-Paraguay. Tel y Fax: (595-21) 208 963 - 214 055. Email: antoniocubillaramos@gmail.com.

Fecha de recepción el 17 de octubre del 2016; aceptado el 12 de diciembre del 2016.

ABSTRACT

We are presenting a 52-year-old patient with phimosis due a tumor like mass, which on pathological evaluation was diagnosed as lepromatous leprosy. The patient had a history of Hansen's disease involving the skin, the larynx and the bronchial tree. Before a circumcision, a physical examination revealed in addition to the lepromatous changes the presence of megaesophagus secondary to stenosis of the distal portion. Laboratory analysis for *Tripanosomacruzi* using ELISA technique was positive for Chagas Disease. We could find only one previous report of lepromatous leprosy affecting the foreskin. The coexistence of leprosy and myocardial Chagas disease is unusual but well known in reports from Brazil and India. However, this is, to our knowledge, the first case reported of an association of lepromatous leprosy and chagasicmegaesophagus in a patient with phimosis.

Key Words: Leprosy, Lepromatous, Chagas Disease, Phimosis.

INTRODUCCION

La Lepra o Enfermedad de Hansen, es causada por la bacteria *Mycobacterium leprae* que tienen la tendencia de atacar las zonas más frías del cuerpo como las manos, los pies, las rodillas y los codos (1,2). Así mismo, respetando las zonas con temperaturas más elevadas (37 grados Celsius) como los genitales, cuero cabelludo y párpados. Estas zonas más calientes, por estar raramente afectadas, son conocidas como "zonas inmunes" (3). Los genitales masculinos se encuentran raramente afectados por esta enfermedad (4). La mayoría de los casos que reportan lesiones en genitales, también refieren presencia de lesiones en otras regiones del cuerpo (5). Las lesiones en genitales se encuentran generalmente en el escroto, con o sin afectación del cuerpo peneano, glande o prepucio (6). En un gran estudio que se realizó en 467 pacientes con enfermedad de Hansen, 6,6% presentó afectación genital (7). En una revisión de lepra en el aparato genitourinario con una cohorte de 200 pacientes afectados por lepra, un 10% presentó lesiones lepromatosas en prepucio (8). Otro estudio de 450 pacientes con enfermedad de Hansen reportó una incidencia de 2,9% de lesiones lepromatosas en genitales, siendo estas más frecuentes a nivel del glande, cuerpo peneano y surco coronal (9). La afectación del prepucio es menos común. Se observó que los casos reportados de lepra con lesiones en la región genital eran de los subtipos tuberculoide, borderlinetuberculoide, borderline, borderline lepromatoso, lepromatoso e histioide (10-12). Sólo se encontró un caso de lepra de tipo lepromatosa a nivel del prepucio (13).

La enfermedad de Chagas es una rara afección, más común en países con clima tropical y por lo general más frecuente en regiones rurales. Esta producido por el parásito *Trypanozoma cruzi*, endémico en ciertas zonas del Paraguay (14). Se espera que la afectación simultánea de lepra y enfermedad de Chagas en zonas endémicas resulten de una coincidencia inusual, pero se han reportado casos (15). Los pocos reportes disponibles sobre esta coinfección muestran una asociación de varios subtipos de lepra con miocardiopatía chagásica (16). Sin embargo, no encontramos ninguna referencia de la asociación entre megaesófago chagásico y lepra con afectación genital. El objetivo de este estudio es reportar una asociación muy inusual de lepra y enfermedad de Chagas en un paciente con fimosis por una masa pseudotumoral.

CASO CLINICO

Adulto de sexo masculino de 52 años de edad con diagnóstico previo de lepra de varios años de evolución, procedente de medio rural tropical en el norte de Paraguay donde recibió tratamiento hasta hace 6 meses. Consulta en el Instituto Nacional de Enfermedades Respiratorias (Asunción, Paraguay) por fimosis y una masa de forma irregular en el prepucio. Además, refería dificultad respiratoria, disfonía, disfagia y fiebre prolongada.

El examen físico revelaba múltiples nódulos en la piel de la región cervical, ambos codos y brazos; de características firme e indoloras (**Figura 1**).

En el abdomen presentaba lesiones cicatriciales extensas. Se constató pérdida de la sensibilidad en la piel de ambos miembros inferiores. El pene presentaba una masa pseudotumoral blanda, irregular y lobulada a nivel del prepucio que impedía su retracción por estrechamiento del anillo prepucial (**Figura 2**).

Mediante una laringoscopia se observó lesiones rojizas tipo ulcerativas y otras cicatriciales a nivel de las cuerdas vocales además de estenosis de la glotis. La broncoscopia mostró similares lesiones rojizas tipo ulcerativas en bronquios. Para estudiar la causa de la disfagia se realizó un esofagograma con contraste que reveló estenosis del tercio inferior del esófago con dilatación proximal, compatible con un megaesófago (**Figura 3**).

El análisis laboratorial mediante la técnica de ELISA presentó valores de IgG positivos para la enfermedad de Chagas, mientras que las pruebas para HIV y VDRL resultaron negativas.

Se procedió a una circuncisión en la que se obtuvo una pieza prepucial con medidas de 5x2x3 centímetros para un posterior estudio anatómico-patológico. A la macroscopía, la superficie externa de la piel prepucial se presenta homogénea, de color grisáceo y levemente lobulada. Al corte se observó un tejido elástico de color beige amarillento debajo de la superficie epitelial (**Figura 4**).

La microscopía reveló a nivel de la superficie de la piel una epidermis normal sin alteraciones. Las capas de la dermis y dartos estaban reemplazadas por densa infiltración de células tipo histiocíticas y espumosas. A mayor aumento, los núcleos fueron de redondos a ovoides con un citoplasma finamente granular y claro. Las células se disponían como en planchas aunque se constató la presencia de micronódulos dispersos en forma de pequeños satélites. Ocasionalmente se observó la presencia de células gigantes multinucleadas (**Figura 5**).

Por último, se evidenció extensión perineural. La técnica de coloración con el método Ziehl-Neelsen para bacilos BAAR resultó positiva (**Figura 6**).



Figura 1. Clínica. Múltiples nódulos lepromatosos en la piel del brazo, algunos confluentes.



Figura 2. Clínica. Masa multilobulada en la zona ventral del prepucio con estrechamiento del orificio prepucial.



Figura 3. Esófagograma. Se observa estenosis de la parte inferior del esófago mientras que la parte superior esta dilatada. Esta imagen es compatible con megaesófago chagásico.



Figura 4. Macroscopía. Pieza anatómica que corresponde al prepucio circuncidado. Se observa una coloración amarilla uniforme reemplazando la dermis y el dartos. La lesión es extensa abarcando la mayoría del espécimen.

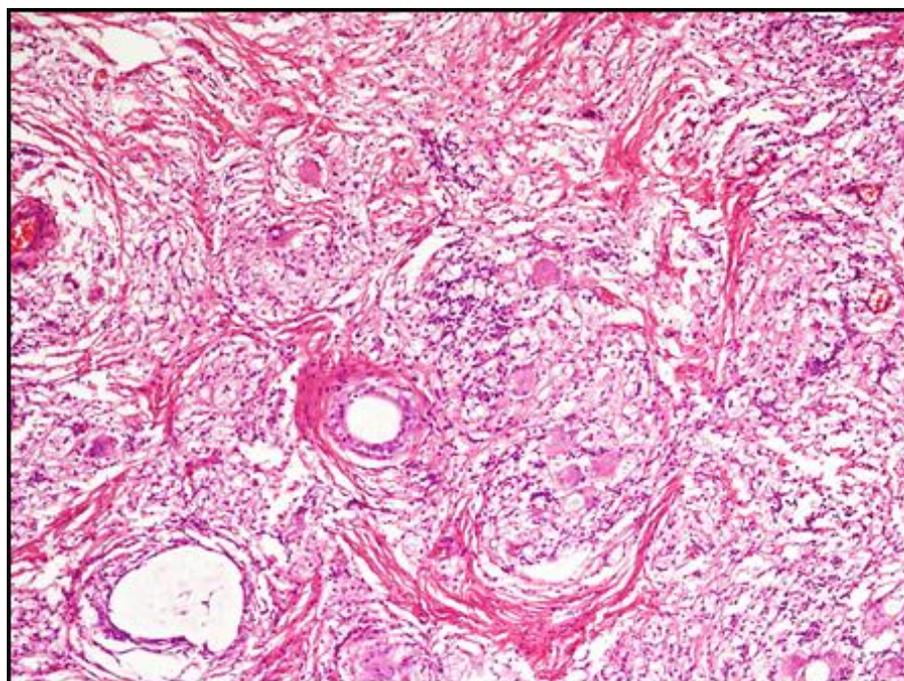


Figura 5. Histopatología. Características microscópicas donde se observan células multinucleadas en forma dispersa. (HE 10X)

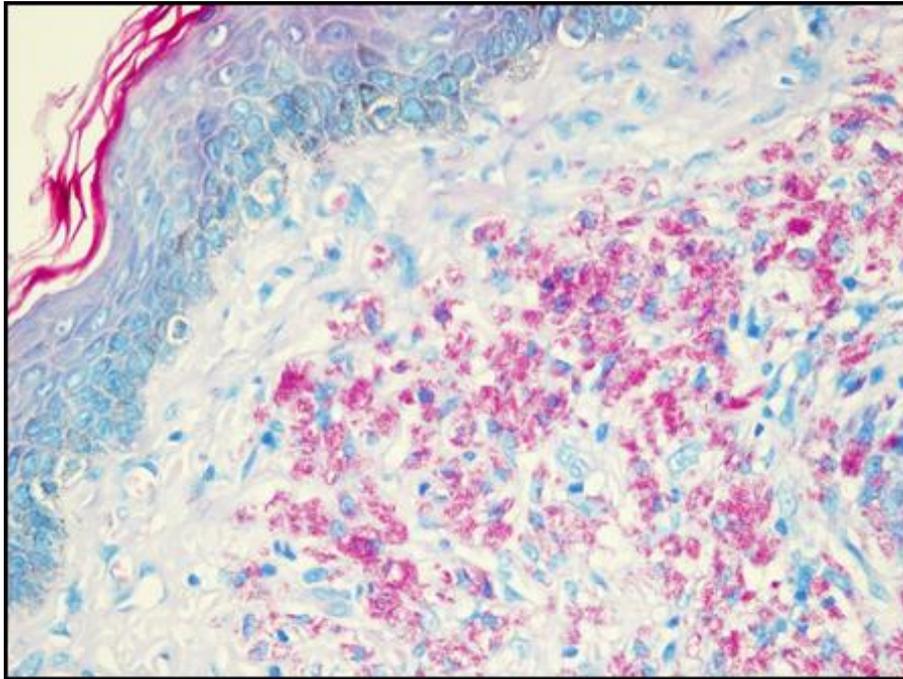


Figura 6. Histopatología. Características microscópicas mediante técnica de coloración Ziehl-Neelsen.

DISCUSION

Reportamos un caso único de una masa pseudotumoral en pene en un paciente coinfectado por lepra y enfermedad de Chagas. El paciente presentaba dificultad para retraer el prepucio mientras que el examen físico reveló una masa firme de disposición circunferencial alrededor del mismo produciendo estrechamiento del orificio prepucial. El diagnóstico clínico fue de un carcinoma de pene, teniendo este una incidencia de 2-3 casos por 100,000 hombres (Barreto, J. Registro Nacional de Tumores, Ministerio de Salud Pública, Asunción, Paraguay. Comunicación personal. 2011). Aunque la mayoría de los carcinomas de pene se originan en el glande, existen algunos casos (aproximadamente 10-20%) de localización exclusivamente prepucial (17). Sin embargo, la evaluación anatómo-patológica de la pieza circuncidada reveló una infiltración de células histiocíticas espumosas en la lámina propia y dartos con extensión perineural. Este hallazgo indujo a la sospecha de lepra subtipo lepromatosa que se confirmó mediante el resultado positivo de la tinción para bacilos ácido-alcohol resistentes con técnica Ziehl-Neelsen.

Han sido reportados contados casos de lepra con presentación de una masa pseudotumoral en prepucio siendo estos la mayoría de tipo tuberculoide o borderline (7). Encontramos sólo un caso reportado de afección prepucial de lepra lepromatosa, convirtiéndose el nuestro en el segundo caso (9). Se reportó un caso de un niño de 5 años con diagnóstico de lepra tuberculoide subpolar presentando lesiones exclusivamente en pene y cuyo padre presentaba lepra lepromatosa (18). Nuestro caso representa un paciente de lepra lepromatosa pobremente tratada afectando múltiples regiones tales como piel, laringe, bronquios y prepucio.

Otro rasgo muy peculiar de este caso es la inusual coinfección de lepra y enfermedad de Chagas; situación que se presenta en países con climas tropicales donde ambas condiciones son por lo general endémicas.

Revisando dos evaluaciones de pacientes con enfermedad de Hansen en el Brasil, los porcentajes de pacientes que resultaron seropositivos para enfermedad de Chagas fueron de 38,6% y 14% respectivamente (19,20). Es importante aclarar que muchos de estos pacientes con lepra no se reportaron sintomáticos para la enfermedad de Chagas (15). En estudios electrocardiográficos hechos en pacientes con lepra y mal de Chagas se observó que las anomalías se presentaban casi con la misma frecuencia tanto en pacientes coinfectados como en pacientes con una u otra enfermedad (21). Los pacientes reportados con ambas afecciones presentaban miocardiopatía chagásica (22). No pudimos encontrar en la literatura disponible (PUBMED y Google Scholar) ningún caso de asociación entre lepra y megaesófago chagásico como nuestro reporte. No sabemos con certeza si la lepra puede afectar las células nerviosas ganglionares del tracto alimentario. En este caso, como en otros casos reportados, la enfermedad de Chagas pasó clínicamente inadvertida hasta que el paciente consultó por la lesión en pene.

En conclusión, presentamos un paciente coinfectado con enfermedad de Chagas y lepra, presentado con una lesión pseudotumoral en prepucio y un diagnóstico histológico de lepra lepromatosa; siendo ésta una presentación única de la enfermedad.

CONFLICTO DE INTERESES

No existen factores que puedan provocar conflictos de intereses entre los autores de dicho trabajo. No se han precisado fuentes de financiación para el desarrollo de este estudio.

REFERENCIAS BIBLIOGRAFICAS

1. Anish SA. The relationship between surface temperature and dermal invasion in lepromatous leprosy. *Int J Lepr Other Mycobact Dis.* 1971;39(4); 848-51
2. Indira D, Kaur I, Sharma VK, Das A. Palmoplantar lesions in leprosy. *Indian J Lepr* 1999;71(2);167-72
3. Jopling WH, McDougall AC. *Handbook of leprosy*, 5ed, New Delhi: CBS Publications 1996:10-49pp
4. Fox H, Knott J. Leprous nodules on male genitalia. *Int J Lepr*, 1934;2;445-46
5. Ghorpade A, Ramanan C. Primary penile tuberculoid leprosy. *Indian J Lepr* 2000;72;499-500
6. Shaw N, Ebenezer G, Rao S. Leprosy lesion on the prepuce of the male genitalia: a case report. *Lepr Rev.* 2002;73;276-78
7. Kumar B, Kaur I, Rai R, Mandaal SK, Sharma VK. Involvement of male genitalia in leprosy. *Lepr Rev* 2001;72(1);70-7
8. Grabstald H, Lawrence S. Genitourinary lesions in leprosy with special reference to the problem of atrophy of the testes. *JAMA*, 1952 149(14); 1287-91.
9. Arora SK, Mukhija RD, Mohan L, Girdhar M. A study of cutaneous lesions on male external genitalia. *Indian J Lepr* 1989;61(2);222-24
10. Desikan KV, Iyer CG. Histioid variety of lepromatous leprosy: A histopathologic study. *Int J Lepr Other Mycobact Dis.* 1972;40;149-56
11. Mukhopadhyay AK. Primary involvement of penile skin in lepromatous leprosy. *Indian J Lepr* 2005; 77(4); 317-21
12. Kaliyadan F, Dharmaratnam A, Cyriac M. Histioid leprosy with penile shaft lesions. *Indian Dermatology Online Journal.* 2012;3(1);68-70
13. Badge S, Gosavi A, Ramteerthkar N, Sulhyan K. Lepromatous leprosy of the prepuce- A case report. *Journal of Krishna Institute of Medical Sciences University.* 2013; 2(1);117-19
14. Global Leprosy Situation, World Health Organization *WklyEpidemiol Rec.* 2013; 33;333-40

15. Trindade M, Carvalho N, Belfort E, Pagliari C, Gakiya E, Sakai-Valente N, Benard G, Shikanai-Yasuda M. A patient with Erythema Nodosus Leprosum and Chagas Cardiopathy: Challenges in patient management and review of the literature. *The American Journal of Tropical Medicine and Hygiene*. 2011;84(6):973-77
16. Bottasso OA, Morini JC. Electrocardiographic alterations in lepromatous leprosy patients with concomitant Trypanosomacruzi infection. *Int. J Lepr*. 1993;61:468-71
17. Oertell J, Caballero C, Iglesias M, Chaux A, Amat L, Ayala E, Rodriguez I, Velaquez EF, Barreto JE, Ayala G, Cubilla AL. Differentiated precursor lesions and low-grade variants of squamous cell carcinoma are frequent findings in foreskins of patients from a region of high penile cancer incidence. *Histopathology*. 2011;58(6):925-33
18. Kar BR, Ebenezer G, Job CK. Penile tuberculoid leprosy in five year old boy. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2005;71(2):125-27
19. Diniz O. Lepra e doença de Chagas. *Arq Min Leprol* 1948;8:155-69
20. Dias JCP, Cunha DA. Hanseníase e doença de Chagas. Estudos realizados no Sanatório São Francisco de Assis, em Babuí, Minas Gerais. *Rev Soc Med Trop*. 1970;4:31-43
21. Mathur SN, Itigi A, Krishnaveni A, Rao PD. Congestive heart failure in two patients with lepromatous leprosy. *Lepr India*. 1976;48:75-80
22. Lima MA, Rodrigues-Jr V, Silva-Vergara ML, Nomelini MB, Paim N, Santos TA, Santos VM. Hanseníase virchowiana e cardiopatia chagásica: relato de necropsia. Relato de caso. *Rev Soc Bras Med Trop*. 1998;31:385-90.