

Esporotricosis linfocutánea en un paciente pediátrico, a propósito de un caso

Lymphocutaneous sporotrichosis in a pediatric patient, a case report

Micaela Picollo¹, Carolina Epelbaum¹, Ana Clara Bustos², Susana Carnovale³ y María Teresa Rosanova¹

¹Servicio de control epidemiológico e infectología, Hospital Nacional de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan". Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

²Cuidados intermedios y moderados, Hospital Nacional de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan", Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

³Servicio de microbiología, Hospital Nacional de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan", Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

Conflictos de interés: ninguno

Financiamiento: ninguno

Recibido: 26 de mayo de 2021 / Aceptado: 15 octubre de 2021

Resumen

La esporotricosis es una infección fúngica de evolución subaguda crónica causada por hongos dimórficos del Complejo *Sporothrix schenckii*. Es más frecuente en zonas tropicales. La prevalencia en Argentina se estima entre 0,01 y 0,02%. En la mitad de los pacientes se manifiesta como una esporotricosis linfocutánea, la cual se produce tras la inoculación del hongo en la piel luego de un trauma menor. La lesión inicial es una pápula o nódulo que se sucede con la aparición de una cadena ascendente de nódulos subcutáneos móviles, indolores y eritematosos. El diagnóstico se realiza a partir del cultivo micológico. El antifúngico de elección es itraconazol y el pronóstico es usualmente favorable. Se presenta el caso de una niña de 4 años, previamente sana, que consultó por adenopatías axilares de evolución subaguda sin respuesta a múltiples esquemas antimicrobianos, confirmándose el diagnóstico de una esporotricosis linfocutánea por el cultivo de una biopsia ganglionar.

Palabras clave: Complejo *Sporothrix schenckii*; esporotricosis; adenomegalia; niños.

Abstract

Sporotrichosis is a subacute-chronic fungal infection caused by dimorphic fungi of the *Sporothrix schenckii* Complex. It is more common in tropical areas. The prevalence in Argentina is estimated between 0.01 and 0.02%. In half of the patients it manifests as lymphocutaneous sporotrichosis, which occurs after inoculation of the fungus into the skin after minor trauma. The initial lesion is a papule or nodule that occurs with the appearance of an ascending chain of mobile, painless and erythematous subcutaneous nodules. The diagnosis is made from mycological culture. The antifungal of choice is itraconazole and the prognosis is usually favorable. We present the case of a healthy 4-year-old girl who consulted for subacute axillary lymphadenopathy without response to multiple antimicrobial regimens, arriving at the diagnosis of lymphocutaneous sporotrichosis from the culture of a lymph node biopsy sample.

Key words: *Sporothrix schenckii* Complex; sporotrichosis; lymphadenopathy; children.

Introducción

Las especies del género *Sporothrix schenckii* se encuentran distribuidas en todo el mundo, especialmente en zonas tropicales y subtropicales. Ciertas actividades recreativas o laborales aumentan el riesgo de infección^{1,2}, la que puede producirse por la inoculación cutánea accidental del hongo. Usualmente los pacientes afectados presentan un compromiso cutáneo y subcutáneo, aunque ocasionalmente pueden verse comprometidos otros tejidos e incluso

puede haber formas diseminadas³. Se presenta el caso de una preescolar que presentó un conglomerado ganglionar axilar subagudo, en quien se llegó finalmente, por un cultivo de biopsia ganglionar, al diagnóstico de una esporotricosis linfocutánea.

Caso clínico

Preescolar de 4 años y 7 meses de edad, previamente sana, con el esquema de vacunación argentino completo, consultó por un conglome-

Correspondencia a:

Dra. Picollo Micaela
micaelapicollo@gmail.com

rado de adenopatías axilares de dos semanas de evolución con una posible puerta de entrada en una lesión en la piel del antebrazo, de causa desconocida, sin otra sintomatología acompañante. Ya había recibido múltiples esquemas antimicrobianos por vía oral sin presentar mejoría, por lo que se decidió su internación para su estudio. Como antecedente epidemiológico, la paciente era oriunda de una zona rural de la Provincia de Buenos Aires. La familia refería la tenencia de animales de granja, perros y un gato. Este último, fallecido recientemente, tenía antecedente de placas alopecias en la cara y cuerpo.

A su ingreso, se encontraba en buen estado general. En la cara posterior del antebrazo derecho se evidenció una lesión costrosa con una pequeña ulceración central (Figura 1). En la cara interna del brazo derecho se palpaba un trayecto lineal indurado en dirección a la axila (Figura 2), donde se localizó una adenomegalia blanda, móvil, dolorosa a la palpación de aproximadamente 4 x 3 cm (Figura 3).

Dentro de los estudios complementarios, el hemograma mostró una leucopenia, los hemocultivos fueron negativos, los cultivos bacterianos, micológicos y para micobacterias de médula ósea por punción aspirativa también resultaron negativos, sin evidencia de células tumorales. La PCR era de 14 mg/l y la velocidad de eritrosedimentación 38 mm/h. Las serologías para VIH, VHB, toxoplasmosis, sífilis, *Bartonella henselae* fueron negativas, y las de citomegalovirus y VEB tenían valores sugerentes de una infección pasada. Se realizó una eco-

grafía abdominal que fue normal y una ecografía axilar que mostró un conglomerado ganglionar con múltiples adenomegalias, con dos colecciones en su interior (de 3,6 x 1,2 cm y 2 x 1,8 x 1 cm; respectivamente), asociado a un aumento del espesor y ecogenicidad del tejido celular subcutáneo circundante. En la cara interna del tercio distal del brazo se confirmó un conglomerado ganglionar abscedado de 3,8 x 1,6 cm.

También se realizó estudio para descartar tuberculosis con una prueba de PPD, radiografía de tórax y baciloscopias de contenido gástrico (por tres), todas con resultados negativos.

Recibió terapia en forma empírica con ceftriaxona y clindamicina por sospecha de una adenitis de etiología bacteriana. Ante la falta de respuesta a los 10 días de tratamiento antibacteriano, se realizó una biopsia para estudio de una adenopatía crónica.

El estudio histopatológico informó un proceso granulomatoso crónico necrosante con focos de abscedación, con tinciones de Ziehl-Neelsen, PAS y Grocott negativas. Los cultivos ganglionares para bacterias y micobacterias fueron negativos. El estudio micológico incluyó una observación microscópica directa de la muestra que fue negativa y un cultivo en agar glucosado Saboureaud a 28 y 37°C con resultado positivo para el Complejo *Sporothrix schenckii*, obteniéndose a 37°C el desarrollo de la forma parasitaria levaduriforme, mientras que a 28°C se evidenció la fase saprofita, caracterizada por hifas hialinas ramificadas y conidios globosos. Con el diagnóstico de



Figura 1. Lesión costrosa en antebrazo con una pequeña ulceración central.



Figura 2. Trayecto lineal indurado en dirección a la axila.



Figura 3. Adenomegalia axilar.



Figura 4. Cicatriz hipocrómica en sitio de inoculación del antebrazo.

una esporotricosis linfocutánea se indicó tratamiento con itraconazol 10 mg/kg/día en suspensión oral. Se midieron niveles de inmunoglobulinas y poblaciones linfocitarias ampliadas con resultados dentro de parámetros normales. Cumplió tres meses de tratamiento antifúngico, evidenciándose una mejoría progresiva hasta resolución completa de las lesiones. Quedó con una cicatriz hipocrómica en sitio de inoculación (Figura 4). No presentó recaída de la enfermedad tras un año de seguimiento.

Discusión

Las distintas especies que definen al Complejo *Sporothrix schenckii* difieren en su distribución geográfica y sus características microbiológicas, siendo *S. brasiliensis* y *S. schenckii* los de mayor virulencia¹. Se encuentran ampliamente distribuidos en el mundo, especialmente en suelos ricos en celulosa de las áreas tropicales y subtropicales donde las temperaturas rondan los 30°C, el pH del suelo se encuentra entre 3,5-9,4 y la humedad es elevada². Todas las especies del Complejo *S. schenckii* son hongos dimórficos, es decir, crecen en la naturaleza en su forma micelial, produciendo abundantes conidias (formas infectantes), mientras que una vez que infecta al humano u otros animales de sangre caliente pasan a su forma de levadura, causante de las infecciones crónicas¹⁻³.

La prevalencia de la esporotricosis no se conoce con exactitud. Existen ciertas áreas hiperendémicas como Perú, donde la incidencia se encuentra entre 48-98 casos

por 100.000 habitantes⁴ y 156 por 100.000 habitantes en niños⁵. En los últimos años, la esporotricosis por *S. brasiliensis* ha emergido en Brasil como una enfermedad zoonótica de gran importancia; tan solo en el Estado de Río de Janeiro, donde es hiperendémica, se registraron más de 4.000 casos de esporotricosis humana y felina entre 1998 y 2012. Algunos autores sugieren que los felinos presentan una susceptibilidad especial para adquirir infecciones por esta especie⁶. En estos casos, la infección de los humanos se produjo tras el contacto con lesiones, mordeduras o rasguños de felinos enfermos, como en nuestra paciente.

En la región sudeste de Brasil, entre enero y mayo de 2018, se registraron 3.510 casos de esporotricosis⁶. La prevalencia de esta infección en Argentina se estima entre 0,01 y 0,02%², mientras que en Chile es extremadamente rara, con escasos reportes de casos de esporotricosis con confirmación microbiológica⁷⁻⁹. Sin embargo, en este contexto epidemiológico que afecta a países vecinos como Brasil y Perú, y ante el subregistro por no tratarse de una zoonosis de notificación obligatoria, la infección puede rápidamente extenderse a países de menor incidencia como Chile y Argentina, por lo que resulta importante tener presente a esta entidad dentro de los diagnósticos diferenciales ante un cuadro clínico compatible.

La forma de presentación depende de la respuesta inmune del hospedero, el inóculo y la virulencia de la cepa implicada^{2,3}. Clínicamente se clasifica en esporotricosis cutánea fija, esporotricosis linfocutánea, esporotricosis cutánea diseminada y esporotricosis diseminada. También se describen síndromes de hipersensibilidad asociados a la infección como el eritema nodoso, eritema multiforme, síndrome de Sweet y la artritis reactiva⁷. La esporotricosis linfocutánea es la más frecuente (50%)^{10,11}. En estos casos, la infección se produce tras la inoculación del hongo en la piel a partir de un trauma menor, aunque también puede producirse por contacto con animales infectados^{2,3}, como presumiblemente ocurrió en nuestra paciente.

El sitio de inoculación en niños se localiza más frecuentemente en cara y extremidades¹¹. El periodo de incubación es entre siete días hasta los seis meses^{12,13}. La lesión inicial es papulo-nodular, de unos pocos milímetros a 4 cm, frecuentemente eritematosa, indolora e inicialmente móvil, con tendencia a la ulceración^{10,11}. La infección progresa comprometiendo los ganglios linfáticos que drenan el sitio de inoculación. El resultado final es la aparición de una cadena ascendente de nódulos subcutáneos móviles, indoloros, eritematosos, lo que constituye la manifestación clínica clásica de la esporotricosis¹¹, esto se denomina habitualmente “patrón esporotricóide”⁷. No suele acompañarse de síntomas sistémicos¹⁰.

La esporotricosis es la primera causa de linfangitis nodular, por lo que debería plantearse como diagnós-

tico presuntivo frente a dicha presentación clínica. Sin embargo, existen otras entidades que pueden cursar con clínica similar. Entre los diagnósticos diferenciales se encuentran infecciones por micobacterias, *Nocardia* spp, *Leishmania braziliensis*, *Coccidioides immitis*/C. *posadasii*, *Blastomyces dermatitidis*, *Staphylococcus aureus* e *Histoplasma capsulatum*¹⁴.

El aislamiento de *S. schenckii* por métodos de cultivo es el patrón de oro para el diagnóstico. El diagnóstico definitivo requiere la conversión de la fase micelial a la fase de levadura que se logra mediante el subcultivo en medios enriquecidos a temperaturas a 28 y 37 °C. En su estado saprófito (a 25-28 °C) crece en su forma filamentosa, la que al examen microscópico muestra la presencia de hifas hialinas septadas delgadas. Los conidióforos son largos y finos y de ellos nacen conidias simples hialinas ovaladas o alargadas dispuestas en forma de flor. Macroscópicamente se presenta como una colonia blanca-cremosa que con el tiempo se vuelve más oscura en medios como agar Sabouraud, requiriendo de al menos cinco a siete días para su desarrollo. La forma levaduriforme se obtiene mediante el cultivo en medios enriquecidos a 35-37 °C. Tanto en su forma filamentosa como levaduriforme, *Sporothrix* es capaz de producir melanina¹⁵. El estudio histopatológico puede contribuir al diagnóstico, visualizándose usualmente un proceso inflamatorio mixto, con áreas granulomatosas y piógenas. *Sporothrix schenckii* suele ser difícil de documentar aun utilizando tinciones especiales como la técnica de Schiff o Gomori. De visualizarse, los elementos fúngicos

pueden estar presentes en forma de levadura (cuerpos asteroides), como células elongadas con forma de cigarro o como hifas, siendo características, pero no patognomónicas⁷. En nuestro caso la anatomía patológica no fue concluyente y arribamos al diagnóstico a partir de métodos de cultivo en agar glucosado Sabouraud, con incubación a 28 y 37°C.

El antifúngico de elección para el tratamiento de las esporotricosis linfocutánea es itraconazol 5 mg/kg/dosis dos veces al día, máximo 200 mg/dosis, y debe mantenerse por dos a cuatro semanas luego de la resolución completa de las lesiones, para lo cual se requieren usualmente terapias entre tres y seis meses^{12,16,17}. Algunos autores recomiendan realizar monitoreo plasmático de itraconazol¹⁸. En nuestro caso no lo pudimos realizar por la falta de disponibilidad. La respuesta al tratamiento, como evidenciamos en nuestra paciente, suele ser excelente y el pronóstico favorable¹².

Conclusión

A pesar de que la esporotricosis es una infección poco frecuente tanto en Argentina como en Chile, debe considerarse esta entidad dentro de los diagnósticos diferenciales de lesiones linfocutáneas que no responden a la terapia antibacteriana habitual, como en el caso presentado. La realización oportuna de biopsia y cultivo de las lesiones permite instaurar un tratamiento antifúngico precoz. El pronóstico es en general favorable.

Referencias bibliográficas

- 1.- Bonifaz A, Tirado-Sánchez A. Cutaneous disseminated and extracutaneous sporotrichosis: Current status of a complex disease. *J Fungi* 2017; 3: 6. doi: 10.3390/jof3010006.
- 2.- Chakrabarti A, Bonifaz A, Gutierrez-Galhardo M C, Mochizuki T, Shanshan L. Global epidemiology of sporotrichosis. *Med Mycol* 2014; 53: 3-14. doi: 10.1093/mmy/myu062.
- 3.- Wolff D, Feldt T, Reifemberger J, Sebald H, Bogdan C. The Brief Case: Cutaneous sporotrichosis in an immunocompetent patient after travel to Peru. *J Clin Microbiol* 2018; 56: e01958-17. doi: 10.1128/JCM.01958-17.
- 4.- Pappas P G, Tellez I, Deep A E, Nolasco D, Holgado W, Bustamante B. Sporotrichosis in Peru: description of an area of hyperendemicity. *Clin Infect Dis* 2000; 30: 65-70. doi: 10.1086/313607.
- 5.- Lyon G M, Zurita S, Casquero J, Holgado W, Guevara J, Brandt M E, et al. Population-based surveillance and a case-control study of risk factors for endemic lymphocutaneous sporotrichosis in Peru. *Clin Infect Dis* 2003; 36: 34-9. doi: 10.1086/345437.
- 6.- Etcheopaz A, Toscanini M A, Gisbert A, Mas J, Scarpa M, Iovannitti C A, et al. *Sporothrix brasiliensis*: A review of an emerging South American fungal pathogen, Its related disease, presentation and spread in Argentina. *J Fungi (Basel)* 2021; 7: 170. doi: 10.3390/jof7030170.
- 7.- Silva-Astorga M, Mena-Vergara L, Giacaman P, Zapata S. Esporotricosis, una realidad aún presente en Chile: a propósito de un caso. *Rev Med Clin Condes* 2021; 32: 240-5. doi: 10.1016/j.rmcl.2021.01.006.
- 8.- Escaffi M J, Benedetto A, Podlipnik S, Díaz M C, Misad C. Esporotricosis cutánea: Revisión a propósito de un caso contraído en Chile. *Rev Chil Dermatol* 2010; 26: 154-8.
- 9.- Cruz R, Vieille P, Oschilewski D. Aislamiento ambiental de *Sporothrix globosa* en relación a un caso de esporotricosis linfo-cutánea. *Rev Chilena Infectol* 2012; 29: 401-5. doi: 10.4067/S0716-10182012000400006.
- 10.- Rex J H, Okhuysen P C. Chapter 259: *Sporothrix schenckii*. In Bennett JE, Dolin R, Blaser M J, eds. *Principles and Practice of Infectious Diseases*. 9th ed. Philadelphia, PA: Elsevier; 2019: p. 3131-6.
- 11.- Patterson T F, Sutton D A. Chapter 248: *Sporothrix schenckii* Complex (Sporotrichosis). In Long SS, Prober CG, Fischer M, eds. In: *Principles and Practice of Pediatric Infectious Diseases*. 5thed. Philadelphia, PA: Elsevier; 2017: p. 6600-9.
- 12.- American Academy of Pediatrics. Section 3. Summaries of infectious diseases. In: Kimberlin DW, Brady M T, Jackson M A, Long SS, eds. *Red Book: 2018 Report of the Committee on Infectious Diseases*. 31sted. Itasca, IL: American Academy of Pediatrics; 2018: p. 730-2.
- 13.- Wiedermann BL. Chapter 205: Sporotrichosis. In Feigin and Cherry's Textbook of Pediatric Infectious Diseases. 8th ed. Philadelphia, PA: Elsevier, 2019: p. 2091-4.
- 14.- Tirado-Sánchez A, Bonifaz A. Nodular lymphangitis (sporotrichoid lymphocutaneous infections). Clues to differential diagnosis.

- J Fungi (Basel) 2018; 4: 56. doi: 10.3390/jof4020056.
- 15.- Legarraga P. *Sporothrix schenckii*. Rev Chilena Infectol 2016; 33: 563-4. doi:10.4067/S0716-10182016000500012.
 - 16.- Bastos de Lima Barros M, Oliveira Schubach A, de Vasconcellos Carvalhaes de Oliveira R, Batista Martins E, Liporage Teixeira J, Wanke B. Treatment of cutaneous sporotrichosis with itraconazole-study of 645 patients. Clin Infect Dis 2011; 52: e200-6. doi: 10.1093/cid/cir245.
 - 17.- Kauffman C A, Bustamante B, Chapman S W, Pappas P G. Clinical practice guidelines for the management of sporotrichosis: 2007 update by the Infectious Diseases Society of America. Clin Infect Dis 2007; 45: 1255-65. doi: 10.1086/313751.
 - 18.- Queiroz-Telles F, Fahal A H, Falci D R, Caceres D H, Chiller T, Pasqualotto A. Neglected endemic mycoses. Lancet Infect Dis 2017; 17: e367-7. doi: 10.1016/s1473-3099(17)30306-7.