

# Laryngeal Leishmaniasis

## Leishmaniose Laríngea

**Bruno Teixeira de Moraes<sup>1</sup>, Francisco de Souza Amorim Filho<sup>2</sup>, José Caporrino Neto<sup>3</sup>, Paulo Saraceni Neto<sup>4</sup>, José Elson Santiago de Melo Júnior<sup>5</sup>.**

1) Otorrinolaringologista. Mestrando em Ciências da Saúde pelo Departamento de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço da Universidade Federal de São Paulo.

2) Cirurgião de Cabeça e Pescoço. Doutorando em Ciências da Saúde pelo Departamento de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço da Universidade Federal de São Paulo.

3) Otorrinolaringologista. Assistente Doutor do Departamento de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço da Universidade Federal de São Paulo.

4) Médico. Residente pelo Departamento de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço da Universidade Federal de São Paulo.

5) Médico. Especializando pelo Departamento de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço da Universidade Federal de São Paulo.

Instituição: Setor de Laringologia e Voz do Departamento de Otorrinolaringologia da Universidade Federal de São Paulo.  
São Paulo / SP – Brasil.

Endereço para correspondência: Bruno Teixeira de Moraes - Rua Pedro de Toledo, 957 - Vila Clementino - São Paulo / SP – Brasil - CEP: 04039032 – Telefone: (+55 11) 5573-2740 – E-mail: moraesbruno.ori@hotmail.com

Artigo recebido em 7 de agosto de 2010. Artigo aprovado em 24 de outubro de 2010.

### RESUMO

**Introdução:** A leishmaniose é classificada em três apresentações clínicas: visceral, cutânea e mucocutânea. Esta última geralmente é secundária à disseminação hematogênica após meses ou anos de infecção cutânea e pode manifestar-se com lesões infiltrativas, ulceradas ou vegetantes em nariz, faringe, laringe e boca, associadas ou não à enfartamento ganglionar. O acometimento laríngeo faz parte do diagnóstico diferencial de lesões nesta topografia como laringites crônicas inespecíficas, granulomatoses e mesmo tumores das vias aerodigestivas superiores que apresentam evolução atípica. Por vezes, encontra-se dificuldade no diagnóstico correto da leishmaniose, com descrição de casos na literatura que foram conduzidos de forma inadequada.

**Objetivo:** O objetivo deste trabalho é relatar um caso de leishmaniose laríngea abordando sua dificuldade diagnóstica, complicações e terapêutica aplicada.

**Relato de Caso:** Paciente com quadro de dor de garganta, disfagia, odinofagia, disфонia e perda ponderal, sem melhora com medicação sintomática. À telarinoscopia, apresentava lesão infiltrativa nodular em supraglote. Foi submetido à traqueostomia por obstrução de via aérea e biópsia da lesão com estudo imunohistoquímico para definição diagnóstica de leishmaniose laríngea. O paciente foi encaminhado à infectologia que iniciou tratamento com antimoniato de N-metilglucamina, com resposta satisfatória à terapêutica.

**Comentários Finais:** Diante de quadros clínicos com suspeição de doenças granulomatosas, é fundamental seguir protocolo de avaliação laboratorial associado à estudo histológico da lesão, para conseguir uma definição etiológica precisa sem prolongar o tempo de diagnóstico. O tratamento medicamentoso para leishmaniose mucosa, preconizado pela Organização Mundial de Saúde, mostrou-se adequado no caso de afecção laríngea, com melhora completa dos sintomas.

**Palavras-chave:** leishmaniose, leishmaniose mucocutânea, doença granulomatosa crônica, laringe.

### INTRODUÇÃO

A leishmaniose é uma doença granulomatosa infecciosa, não contagiosa, causada pelo protozoário das espécies *Leishmania braziliensis*, *L. amazonensis*, *L. panamensis* e *Leishmania guyanensis*, tipicamente encontradas nas Américas. Sua transmissão ocorre através da picada por insetos flebotomíneos, cujo gênero mais frequente encontrado no Brasil é o *Lutzomyia*. Nos últimos 20 anos, a ocorrência desta afecção encontra-se em franco crescimento, tanto em magnitude como em expansão geográfica, com surtos epidêmicos em várias regiões do país e, mais recentemente, na área amazônica, relacionados ao processo predatório de colonização (1).

Tradicionalmente, a doença é classificada em três apresentações clínicas: visceral (Kala-azar), cutânea e mucocutânea. Esta última geralmente é secundária à disseminação hematogênica após meses ou anos de infecção cutânea e pode manifestar-se com lesões infiltrativas, ulceradas ou vegetantes em nariz (sítio mais comum), faringe, laringe e boca, associadas ou não à enfartamento ganglionar (2). O acometimento das mucosas é dependente da combinação da virulência do parasita e da resposta celular imune do hospedeiro. Dentre a população de indivíduos infectados, 1 a 10% cursam com acometimento das mucosas, entretanto, os fatores específicos que irão determinar quais pacientes desenvolverão, a leishmaniose mucocutânea ainda não estão bem esclarecidos (3).

Embora pouco prevalente, o acometimento laríngeo da leishmaniose faz parte do diagnóstico diferencial de lesões nesta topografia como laringites crônicas inespecíficas, granulomatoses e mesmo tumores das vias aerodigestivas superiores que apresentam evolução atípica (4, 5). Por vezes, encontra-se dificuldade no diagnóstico correto da leishmaniose, com descrição de casos na literatura que foram conduzidos inicialmente como neoplasia maligna, submetendo-se inclusive à radioterapia, e com confirmação posterior da etiologia infecciosa (6).

O objetivo deste trabalho é relatar um caso de leishmaniose laríngea abordando sua dificuldade diagnóstica, complicações e terapêutica aplicada.

## RELATO DE CASO

Paciente SJS, masculino, 51 anos, negro, pedreiro, natural de União de Palmares - AL, e procedente de São Paulo - SP, foi atendido no serviço de otorrinolaringologia de hospital terciário em São Paulo, com relato de “dor de garganta” há três anos, que evoluiu nos últimos quatro meses com disfagia, odinofagia, disфонia e perda ponderal de aproximadamente 8 quilos neste período, sem melhora com medicação sintomática. Negava febre, queixas otológicas ou respiratórias. Apresentava como antecedentes tabagismo moderado, etilista severo, sem histórico de hipertensão arterial, *diabetes mellitus* ou doenças infecciosas.

Ao exame físico encontrava-se com estado geral regular, sem alterações significativas em aparelho respiratório, cardiovascular ou abdômen. À telelaringoscopia, foi visualizada lesão infiltrativa nodular em supraglote acometendo epiglote, prega ariepiglótica, com aspecto vegetante em seio piriforme esquerdo e edema de aritenoides. As pregas vocais encontravam-se móveis e sem lesões estruturais com coaptação glótica completa (Figura 1).

Exames pré-operatórios foram solicitados, em seguida, o paciente foi submetido à laringoscopia de suspensão com biópsia da lesão, cujo resultado histopatológico revelou-se tratar de processo inflamatório inespecífico ulcerado.

Três semanas após esta biópsia, o paciente evoluiu com dispneia e piora do quadro de disfagia, aceitando apenas dieta líquido-pastosa. Foi realizada traqueostomia e nova biópsia da lesão que evidenciou ao exame histopatológico infiltração linfóide atípica. A peça foi enviada para realização de imunohistoquímica que detectou formas amastigotas de *Leishmania sp.* na amostra.

O paciente foi encaminhado à infectologia que iniciou tratamento com antimoniato de N-metilglucamina,



Figura 1. Laringoscopia Pré-tratamento.



Figura 2. Laringoscopia Pós-tratamento.

na dose de 20mg/kg/dia, por via intramuscular, durante 30 dias, com controle ambulatorial e sem intercorrências. Houve melhora importante do quadro logo no início do tratamento, com controle laringoscópico após o 30º dia que evidenciou resolução das lesões. Em seguida, foi realizada decanulação da traqueostomia (Figura 2).

Três meses após o tratamento, o paciente apresentava-se com melhora importante de seu estado geral e nutricional, assintomático e em suas atividades profissionais.

## DISCUSSÃO

A leishmaniose dificilmente é detectada na fase inicial. O doente geralmente apresenta uma ou poucas lesões cutâneas, que aparecem de três a dez semanas após a inoculação, com tendência à cura espontânea em alguns meses, mesmo sem tratamento. Em alguns casos as lesões permanecem ativas por vários anos e estima-se que 3 a 5%

podem evoluir com lesões mucosas de surgimento posterior por disseminação hematogênica. No caso relatado a forma de apresentação foi mucosa de origem indeterminada, já que não havia lesões cutâneas. Acredita-se que tal forma estaria provavelmente associada às infecções subclínicas ou lesões pequenas, não ulceradas, com evolução rápida e que teriam passado despercebidas sem deixar cicatrizes perceptíveis (1).

O acometimento faringo-laríngeo pode ser intenso, a ponto de causar disfagia, dispneia, disфония, odinofagia e tosse. Uma peculiaridade deste caso que difere da literatura é a ausência de lesões nasais, que são frequentemente encontradas na fase inicial da forma mucosa da leishmaniose. Inclusive esse é um parâmetro utilizado no diagnóstico diferencial de doenças como paracoccidiodomicose e tuberculose laríngea que raramente apresentam lesões nasais associadas (7).

O exame de laringoscopia geralmente demonstra um componente inflamatório extenso, com eritema e edemas evidentes. O aspecto granulomatoso associado à presença de úlceras é comum, podendo ainda apresentar exsudato purulento. Na doença avançada, a destruição tecidual pode ser marcante. Diante desta apresentação, é importante levantar hipóteses de outras doenças como, hanseníase, sarcoidose, sífilis, granulomatose de Wegner, lúpus eritematoso sistêmico actinomicose, histoplasmose e neoplasias (8, 9).

Por apresentar um quadro mais exuberante, tanto em relação à sintomatologia quanto aos achados da laringoscopia, o paciente relatado foi encaminhado inicialmente para biópsia da lesão laríngea na tentativa de elucidação diagnóstica, em detrimento de uma avaliação laboratorial complementar criteriosa. Tendo em vista que o diagnóstico da leishmaniose pode ser determinado por exames parasitológicos (pesquisa direta ou cultura), testes imunológicos (Intradermoreação de Montenegro) ou ainda exames moleculares (reação em cadeia polimerase), a solução deste caso possivelmente teria sido antecipada se fossem solicitados exames de rotina para casos suspeitos de granulomatose (VDRL, reação de Montenegro, PPD, sorologias para histoplasmose e paracoccidiodomicose, radiografia de tórax). Especialmente porque os casos de leishmaniose mucosa geralmente apresentam Intradermoreação de Montenegro fortemente positiva, e por outro lado difícil confirmação parasitológica devido à escassez parasitária, o que ficou evidente pela necessidade de realizar duas biópsias e complementação com análise imunohistoquímica para identificação de formas amastigotas (1). Portanto, como protocolo de investigação etiológica na suspeita de granulomatose em órgãos de difícil acesso como a laringe, inicialmente deve-se solicitar exames laboratoriais e de imagem, e caso mantenha-se dúvida diagnóstica, indica-se biópsia das lesões para estudo

histológico. Caso o aspecto da lesão sugira neoplasia maligna, a investigação através de exames não-invasivos e invasivos deverá ocorrer simultaneamente para não retardar o diagnóstico.

Em se tratando de doenças infecciosas com risco de contaminação, o diagnóstico deve ser estabelecido o mais rapidamente possível. O intervalo entre o início dos sintomas e o diagnóstico reflete de certa forma a facilidade de acesso ao serviço de saúde bem como a eficiência no diagnóstico.

O esquema terapêutico utilizado mostrou-se satisfatório. O mesmo está de acordo com as recomendações da Organização Mundial de Saúde (OMS), que preconiza antimoniato de N-metilglucamina como primeira escolha na dose de 20mg/kg/dia com duração mínima de 30 dias. Em pacientes com contra-indicação (gestantes devido à teratogenicidade) ou refratariedade ao tratamento padrão, deve ser utilizada a anfotericina B (10).

---

## COMENTÁRIOS FINAIS

---

Diante de quadros clínicos com suspeição de doenças granulomatosas, é fundamental seguir protocolo de avaliação laboratorial associado à estudo histológico da lesão, para conseguir uma definição etiológica precisa sem prolongar o tempo de diagnóstico. O tratamento medicamentoso para leishmaniose mucosa, preconizado pela OMS, mostrou-se adequado no caso de afecção laríngea, com melhora completa dos sintomas.

---

## REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

---

1. Manual de Vigilância da Leishmaniose Tegumentar Americana. 2ª. ed. Brasília: Editora do Ministério da Saúde; 2007.
2. Grant A, Spraggs PD, Grant HR, Bryceson AD. Laryngeal leishmaniasis. *J Laryngol Otol.* 1994;108(12):1086-1088.
3. David CV, Craft N. Cutaneous and mucocutaneous leishmaniasis. *Dermatol Ther.* 2009;22(6):491-502.
4. Sizeland A. Leishmaniasis in third world. *N Engl J Med.* 1995;332(9): 610-1.
5. Lightfoot, Stanley A. *J Am Board Fam Pract.* 1997;10(5):374-6.
6. Ravisse P, Bensimon P, Lapiorey G. A case of laryngeal leishmaniasis with a long course. *Bull Soc Pathol Exot Filiales.* 1984 May-Jun;77(3):305-11.

7. Lessa MM et al. Leishmaniose Mucosa: aspectos clínicos e epidemiológicos. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2007;73(6):843-847.
8. Carvalho T, Dolci JEL. Avaliação clínica da influência do uso de glucantime em pacientes com Leishmaniose nasal. *Acta ORL.* 2006;24(2):77-82.
9. Caporrino Neto J, Cervantes O, Jotz GP, Abrahão M. Doenças granulomatosas da Laringe. *Acta Awho.* 1998;17(1):6-10.
10. World Health Organization (WHO). The Leishmaniasis: report of a WHO Expert Committee. Geneva, 1984. (Technical Report Series; 701).