

# Leishmaniosi endobronchiale isolata

## Isolated endobronchial leishmaniasis

### Riassunto

Riportiamo la descrizione di un caso clinico di leishmaniosi endobronchiale. La leishmaniosi endobronchiale umana è una antroponosi pressoché cosmopolita che presenta un ampio spettro di sindromi, sia localizzate sia sistemiche, causate da protozoi del genere *Leishmania*, le cui manifestazioni cliniche dipendono dalla risposta immunitaria dell'ospite. Nella maggior parte dei casi la leishmaniosi è asintomatica; tuttavia sono state riconosciute tre manifestazioni cliniche principali: viscerale, cutanea e mucocutanea. Un paziente di 50 anni con anamnesi di asma bronchiale e tracheotomia per pregresso carcinoma squamoso della laringe viene ricoverato dopo accessi al DEA per stato di male asmatico. Nei giorni successivi, il paziente manifesta emoftoe. La TC del torace e la fibrobroncoscopia con l'esame istologico ci permettono di porre diagnosi di leishmaniosi endobronchiale.

### Summary

*We describe a clinical case of endobronchial leishmaniasis. Leishmaniasis is a parasitic disease with a wide range of clinical manifestations depending on the interaction between different Leishmania species and immune host responses. Most infections being asymptomatic, three main clinical syndromes are recognized, namely, visceral, cutaneous and mucocutaneous. A 50 years-old man, with bronchial asthma and tracheostomy for previous laryngeal cancer was admitted at the Department of Respiratory Disease for dyspnea and wheezing but bronchoscopy, histology and radiology confirmed endobronchial leishmaniasis.*

### Introduzione

La leishmaniosi umana è un'antropozoonosi pressoché cosmopolita che presenta un ampio spettro di sindromi, sia localizzate sia sistemiche, causate da protozoi del genere *Leishmania* veicolati da insetti ematofagi, le cui manifestazioni cliniche dipendono dalla risposta immunitaria dell'ospite.

**La leishmaniosi umana è un'antropozoonosi causata da protozoi veicolati da insetti ematofagi, con un ampio spettro di sindromi dipendenti dalla risposta immunitaria dell'ospite.**

La leishmaniosi viscerale è la forma più frequente e severa, che presenta una incidenza annuale di circa 500.000 casi, con una mortalità di circa 80.000, ovvero del 16%<sup>1</sup>. Il 90% dei casi si presenta in cinque paesi: Bangladesh, India, Nepal, Sudan e

Brasile, mentre la malattia è considerata rara nei paesi europei. I sintomi più frequenti sono febbre, cachessia, spleno- ed epatomegalia, pancitopenia accompagnata ad ipergammaglobulinemia.

Il coinvolgimento delle vie respiratorie, e soprattutto il loro interessamento isolato ovvero senza altre localizzazioni viscerali, è inusuale, in particolare nei pazienti immunocompetenti.

Riportiamo la descrizione di un caso clinico di leishmaniosi endobronchiale diagnosticato presso la Struttura Complessa di Pneumologia dell'Ospedale di Mantova.

### Descrizione del caso

Paziente di 50 anni con anamnesi di asma bronchiale e tracheotomia per pregresso carcinoma squamoso della laringe. Viene ricoverato dopo accesso al DEA per stato di male asmatico. Durante la degenza, dopo trattamento con steroidi al dosaggio di 40 mg b.i.d di metilprednisolone



Giuseppe De Donno<sup>1</sup> (foto)  
Massimiliano Beccaria<sup>1</sup>  
Francesco Colpani<sup>2</sup>

<sup>1</sup> S.C. di Pneumologia e UTIR,  
<sup>2</sup> S.C. di Anatomia Patologica,  
Dipartimento CardioToracoVascolare,  
Ospedale Carlo Poma, ASST  
Mantova

### Parole chiave

Leishmaniosi • Bronchiale •  
Fibrobroncoscopia

### Key words

Leishmaniasis • Bronchial •  
Fibrobroncoscopy

Ricevuto il 27-10-2016.

Accettato il 20-2-2017.



Giuseppe De Donno  
S.C. di Pneumologia e UTIR  
Dipartimento CardioToracoVascolare,  
Ospedale Carlo Poma - ASST  
Mantova  
str. Lago Paiolo, 10  
46100 Mantova (MN)  
giuseppe.dedonno@asst-mantova.it

per 5 giorni e successivamente con dosaggi a scalare nell'arco di 10 giorni fino al dosaggio di mantenimento di 10 mg al giorno di prednisolone e broncodilatatori (salbutamolo nella fase acuta sostituito con associazione LABA + ICS in cronico), si è ottenuto un rapido miglioramento del broncospasmo.

Nei giorni successivi, tuttavia, il paziente ha iniziato a manifestare episodi emoftoici recidivanti. Gli esami di laboratorio non mostravano significative alterazioni, non era comparsa anemia, HCV ed HIV erano negativi, così come gli indici di coagulazione erano nella norma. Il paziente è stato pertanto sottoposto a RX del torace che non ha evidenziato lesioni pleuroparenchimali a focolaio in atto. Per il persistere dell'emoftoe, ed in considerazione della anamnesi pregressa (carcinoma laringeo), il paziente veniva sottoposto a TC del torace che evidenziava i noti esiti di laringectomia con in sede cannula tracheostomica; non addensamenti parenchimali d'ambo i lati. Il bronco lobare inferiore sinistro, tuttavia, presentava lume stenotico, con ispessimento circonferenziale della sua parete; alcuni linfonodi lievemente aumentati di volume, con diametro massimo di circa 1,2 cm, erano riconoscibili in sede sottocarenale ed al corno inferiore dell'ilo di sinistra. Tale reperto, in considerazione del quesito clinico (emottisi) necessitava di approfondimento endoscopico, sicché successivamente il paziente è stato sottoposto a fibrobroncoscopia che evidenziava mucosa ipertrofica, diffusamente irregolare superficialmente, con aree pseudopolipoidi alternate a granulazioni biancastre e microulcerazioni (Figura 1).

**Le biopsie bronchiali evidenziavano un quadro istologico compatibile con leishmaniosi, il BAL macrofagi all'80%, linfociti al 10% e neutrofili al 10%.**

Venivano eseguite biopsie bronchiali multiple che evidenziavano un quadro istologico compatibile con leishmaniosi. Il lavaggio broncoalveolare (BAL) evidenziava macrofagi all'80%, linfociti al 10% e neutrofili al 10% e il bronco aspirato pre e post biopsia evidenziava la presenza di materiale mucoso con aree di necrosi commiste a colonie batteriche, forme protozoarie ed alcuni macrofagi alveolari.

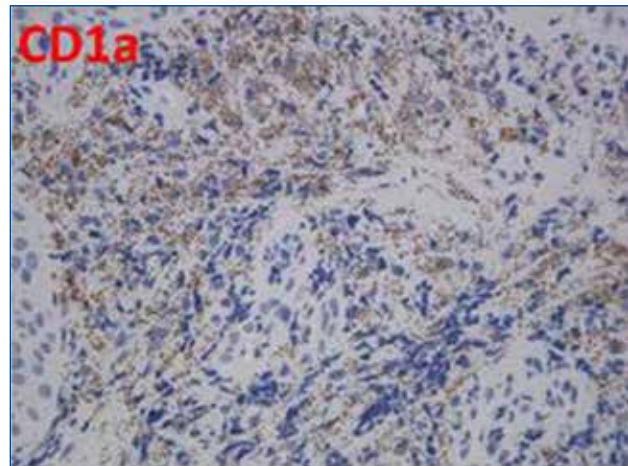
## Discussione

Le biopsie bronchiali hanno evidenziato la presenza di leishmaniosi bronchiale (Figura 2). La sierologia è risultata positiva per *Leishmania* (latex agglutination test diretto ed indiretto positivi). L'approfondimento anamnestico permetteva di identificare la fonte di contagio nel cane domestico, risultato portatore di *Leishmania*, e pertanto abbattuto qualche mese prima. Il paziente è stato trattato con amfotericina B per 15 giorni con progressivo miglioramento clinico.

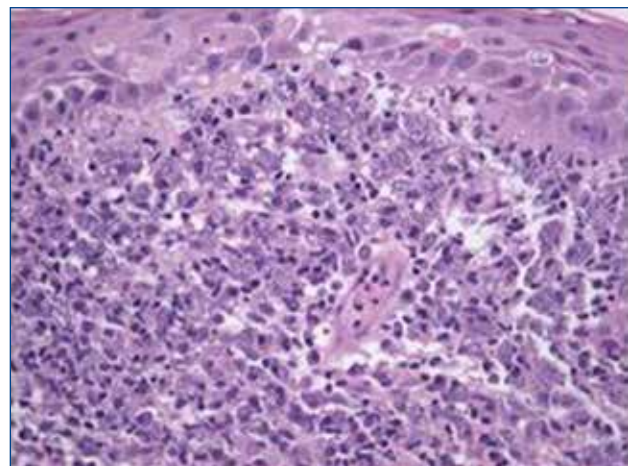
Dopo tre mesi nuovo ricovero ospedaliero con accesso al PS per stato di male asmatico ed emoftoe.



**Figura 1.** A. Carena principale. B. Bronco principale di destra. C. Bronco principale di sinistra.



**Figura 2. A.** Lo studio anatomopatologico ha evidenziato la presenza di una mucosa bronchiale rivestita da epitelio squamoso metaplastico (molto simile alla mucosa del cavo orale). Il connettivo sottoepiteliale è zaffato da cellule infiammatorie (linfociti e plasmacellule) e macrofagi con citoplasma imbottito di puntini basofili (1 micron) corrispondenti alle forme amastigote (senza flagelli) della *Leishmania*.



**Figura 2. B.** Forme di *Leishmania* colorate con anticorpo CD1a di solito usato per tipizzare le cellule di Langerhans (per esempio nel caso di istiocitosi X).

Ricoverato presso la nostra SC, veniva riconfermata citoistologicamente la recidiva di leishmaniosi bronchiale. Il paziente veniva pertanto trattato con amfotericina B liposomiale secondo schema per im-

munodepressi, in considerazione del prolungato uso di steroidi topici e sistemici, quale trattamento dell'asma bronchiale. I successivi controlli clinici e radiologici hanno evidenziato la completa eradicazione della malattia.

**L'approfondimento anamnestico permetteva di identificare la fonte di contagio nel cane domestico, risultato portatore di *Leishmania*.**

## Conclusioni

Abbiamo presentato un caso clinico estremamente raro di leishmaniosi endobronchiale isolata, ovvero, che ha coinvolto unicamente il tratto respiratorio, senza coinvolgimento dei visceri addominali.

**La leishmaniosi colpisce generalmente i pazienti immunodepressi e si presenta con manifestazioni viscerali.**

Questa malattia, come abbiamo già detto, colpisce generalmente i pazienti immunodepressi e si presenta,

in modo quasi assoluto, con manifestazioni viscerali. In questo caso, invece, il paziente non presentava patologie oncoematologiche o infettive responsabili di immunodepressione, anche se si poteva considerare tale per l'uso prolungato e continuo di terapia steroidea, ma la peculiarità è stata la presentazione clinica esclusivamente a carico dell'apparato respiratorio, senza localizzazioni viscerali.

Inoltre dopo l'eradicazione della parassitosi, si è assistito ad un miglioramento clinico dell'asma bronchiale con possibilità di sospensione dello steroide sistemico.

## Bibliografia

- 1 Piscopo TV, Mallia AC. *Leishmaniasis*. Postgrad Med J 2006;82:649-57.
- 2 Badaro R, Jones TC, Carvalho EM. *New perspectives on a subclinical form of visceral leishmaniasis*. J Infect Dis 1996;154:1003-11.
- 3 Etges B, Müller I. *Progressive disease or protective immunity to Leishmaniasis major infection*. J Mol Med 1998;76:372-90.
- 4 Mastroianni A. *Liposomal Amphotericin B and rHuGM-CSF for treatment of visceral leishmaniasis in AIDS*. Infez Med 2004;12:197-204.

Gli Autori dichiarano di non avere alcun conflitto di interesse con l'argomento trattato nell'articolo.



**GEMIR**  
Gestione Multidisciplinare  
delle Infezioni Respiratorie

**Napoli | 27-28 Ottobre 2017 | Hotel Royal Continental**

**Responsabili Scientifici: Bruno Del Prato - Adriano Vaghi**

### SEGRETERIA ORGANIZZATIVA



Via Antonio da Recanate, 2 - 20124 MILANO  
Tel. +39 02 36590350 r.a. - Fax +39 02 67382337  
segreteria@aiporicerche.it - www.aiporicerche.it



Dal 2004 al servizio della Pneumologia Italiana  
aiposegreteria@aiporicerche.it  
www.aiponet.it

seguici su

