

RINOSPORIDIOSIS HUMANA DE CAVIDAD NASAL EN ARGENTINA

JUAN ANTUEL ARACIL¹, JUAN ANTONIO AMICO², PABLO E. BARROS ABDALA³,
MARÍA EUGENIA GALLARD³, DAMIÁN E. MOAVRO¹, NICOLÁS J. CAPURRO¹

¹Servicio de Patología, ²Servicio de Infectología, ³Servicio de Otorrinolaringología,
Hospital Interzonal General de Agudos Gral. San Martín, La Plata, Buenos Aires, Argentina

Dirección postal: Juan Antuel Aracil, Servicio de Patología, Hospital Interzonal General de Agudos Gral. San Martín, Calle 1 y 70,
1900 La Plata, Buenos Aires, Argentina

E-mail: antuelaracil@hotmail.com

Recibido: 1-III-2023

Aceptado: 5-IV-2023

Resumen

La rinosporidiosis es una enfermedad infecciosa causada por el patógeno protista acuático *Rhinosporidium seeberi* que habita en agua dulce de lagos o lagunas y el suelo. Es sumamente infrecuente, siendo endémica en India y Sri Lanka, aunque se han visto casos en países de Europa, África y Sudamérica. Predomina en jóvenes de sexo masculino y afecta tanto a humanos como animales. Se caracteriza por la formación de pólipos rojizos uni o bilaterales, principalmente en cavidad nasal. Los síntomas de presentación en la vía aérea incluyen obstrucción, epistaxis, rinorrea y sensación de cuerpo extraño. Reportamos el caso de un varón de 22 años nativo de Argentina que se presentó a la consulta por insuficiencia ventilatoria nasal, rinorrea y epistaxis. La rinoscopia exhibió una formación polipoide que surgía del tabique septal y ocupaba toda la fosa nasal derecha. Microscópicamente el pólipo estaba revestido por epitelio de tipo respiratorio y pavimentoso y a nivel estromal evidenciaba proceso inflamatorio crónico granulomatoso con presencia de abundantes estructuras quísticas de pared gruesa de entre 100 y 500 µm (esporangios), que contenían en su interior abundantes endosporas. Las técnicas de ácido peryódico de Schiff y Grocott resaltaron dichas estructuras. Dado los antecedentes clínico-epidemiológicos y el cuadro morfológico se arribó al diagnóstico de rinosporidiosis.

Palabras clave: rinosporidiosis, *Rhinosporidium seeberi*, cavidad nasal, Argentina

Abstract

Human rhinosporidiosis of the nasal cavity in Argentina

Rhinosporidiosis is an infectious pathology caused by the aquatic protist pathogen *Rhinosporidium seeberi* that inhabits the fresh water of lakes or lagoons and in the soil. It is extremely rare, being endemic in India and Sri Lanka, although cases have been seen in countries in Europe, Africa and South America. It predominates in young males and affects both humans and animals. It is characterized by the formation of uni- or bilateral reddish polyps, mainly in the nasal cavity. Presenting airway symptoms include obstruction, epistaxis, rhinorrhea and foreign body sensation. We report the case of a 22-year-old man from Argentina who presented with nasal ventilatory insufficiency, rhinorrhea and epistaxis. Rhinoscopy revealed a polypoid formation arising from the septal septum and occupying the entire right nostril. Microscopically, the polyp was covered by respiratory and squamous epithelium, and at the stromal level it evidenced a granulomatous chronic inflammatory process with the presence of abundant thick-walled cystic structures between 100 and 500 µm (sporangia), which contained abundant endospores inside. The periodic acid Schiff and Grocott techniques highlighted these structures. Given the clinical-epidemiological background and the morphological picture, the diagnosis of rhinosporidiosis was reached.

Key words: rhinosporidiosis, *Rhinosporidium seeberi*, nasal cavity, Argentina

La rinosporidiosis es una enfermedad crónica granulomatosa infrecuente causada por el agente etiológico *Rhinosporidium seeberi* (*R. seeberi*), considerado un protista acuático perteneciente a la clase *Mesomycetozoa*, situado filogenéticamente entre el reino fungi y el animal¹. Afecta tanto a humanos como a animales y se han reportado casos en hasta 70 países a lo largo del mundo². Es endémica en India y Sri Lanka donde se concentran la mayor cantidad de casos, pero se ha visto infecciones en países de Europa, África y Sudamérica, probablemente debido a la migración intercontinental³. Todos los grupos etarios pueden verse afectados, aunque prevalece entre los 15 y 40 años, con un predominio por el sexo masculino (relación hombre:mujer 3:1) y se caracteriza por la formación de pólipos de superficie granular rojizos uni o bilaterales, principalmente en fosa nasal, pudiendo asentar sobre conjuntiva, faringe y región génito-anal, entre otras localizaciones^{3,4}. El sitio de presentación más común es en la cavidad nasal (70%), más precisamente a nivel del tabique, suelo, pared lateral y cornete inferior y se manifiestan clínicamente con obstrucción, epistaxis, rino-rrhea mucosa o purulenta y sensación de cuerpo extraño. Hasta un 15% ocurre en región ocular y anexos especialmente en conjuntiva palpebral y saco lagrimal⁵. Los individuos que presentan dicha afección comparten el antecedente de vivir en cercanía a pantanos, aguas estancadas, lagunas o ríos con poca corriente, en los que suelen bañarse o cumplir actividades laborales, por lo que su hábitat natural es el agua y tal vez el suelo contaminado^{4,6}. En la actualidad, se considera puerta de entrada al organismo, el epitelio traumatizado de las mucosas afectadas, proceso conocido como infección transepitelial^{1,3,4}. También se han descrito las vías de diseminación a través de la autoinoculación posterior a un trauma o cirugía y vía hematogena^{3,6}. Es mediante esta última por la que puede darse la propagación a sitios distantes, dependiendo del estado inmune del huésped⁷. En zonas áridas se postuló al polvo como vector de la enfermedad⁵.

Caso clínico

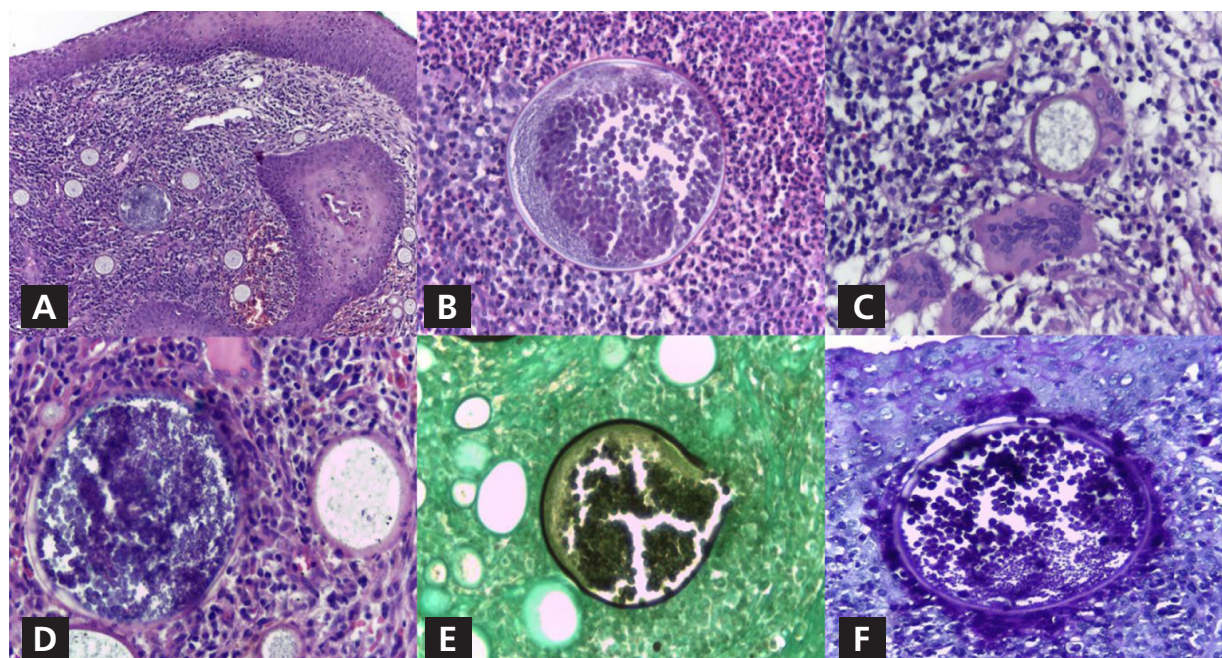
Varón de 22 años de edad, oriundo de la ciudad de Dolores (Buenos Aires, Argentina), quien consultó al Servicio de Otorrinolaringología de

nuestra institución por cuadro de tres semanas de evolución, caracterizado por tumoración en fosa nasal derecha, que ocasionó insuficiencia respiratoria nasal homolateral, rinorrea y epistaxis intermitente. Al interrogatorio el paciente negó antecedentes de relevancia, como enfermedades de base, lesiones similares y medicación habitual. Como antecedente ocupacional, desarrollaba actividad laboral en zona rural, en íntimo contacto con perros y animales de granja (ganado ovino, equino y bovino), los cuales beben de un espejo de agua cercano. Al examen físico, con rinoscopía anterior pertinente, se evidenció una masa polipoide, friable y sangrante al contacto que ocupa la totalidad de la fosa nasal derecha, con implantación a nivel del tabique septal. El paciente acudió con tomografía computada realizada dos semanas antes (de escasos cortes), en la cual se observaba una tumoración nasal derecha, desviación del tabique septal posterior hacia la derecha y los senos paranasales libres. Cabe destacar que, si bien la tomografía no era demasiado antigua, no permitió determinar el tamaño de la lesión con exactitud al momento de la consulta dado el rápido crecimiento de la misma. Se optó por conducta quirúrgica, llevándose a cabo mediante cirugía endoscópica la resección de la totalidad de la tumoración proveniente del septum. La misma se remitió al Servicio de Patología para su posterior evaluación. Se recibió la totalidad del material, fijado en formol al 10%. En la inspección macroscópica se identificó un fragmento polipoide, pardo-rojizo con áreas blanquecinas, de 2.3 × 2.2 × 1.1 cm (Fig. 1). La muestra se procesó de forma rutinaria y se coloreó con hematoxilina-eosina (H-E). Histológicamente el pólipo presentaba revestimiento epitelial de tipo respiratorio y escamoso típicos, marcado proceso inflamatorio crónico granulomatoso a nivel estromal, con presencia de abundantes estructuras quísticas de pared gruesa de entre 100 y 500 µm (esporangios), que contenían en su interior abundantes endosporas en diferentes estadios evolutivos. Ante los hallazgos descritos, se efectuaron, en un segundo tiempo, técnicas de ácido peryódico de Schiff (PAS) y Grocott, las cuales resultaron positivas, permitiendo el diagnóstico de rinosporidiosis de cavidad nasal (Fig. 2). Se indicó dapsona 100 mg trisemanal durante tres semanas. El paciente, a

Figura 1 | Tomografía computada: A: Corte axial. B: Corte coronal. Evidencia tejido con densidad de partes blandas en la cavidad nasal derecha. C: Pieza quirúrgica. Material polipoide con dimensiones de $2.3 \times 2.2 \times 1.1$ cm, blanquecino de aspecto edematoso y con focos erosivos



Figura 2 | A: Mucosa revestida por epitelio pavimentoso con estructuras quísticas en el estroma (H-E. 10X). B: Esporangios con endosporas e inflamación adyacente (H-E. 40X). C: Células gigantes multinucleadas con esporangios en su interior. D: Esporangios en distintos estadios evolutivos y células gigantes dispersas (H-E. 40X) E: Técnica de Grocott (40X). F: Técnica de PAS (40X)



casi dos años del inicio del cuadro no presentó recurrencias ni otras complicaciones.

Discusión

El patógeno infeccioso *R. seeberi*, es considerado actualmente un parásito protista de la clase *Mesomycetozoa*⁴. Su clasificación taxonómica ha sido compleja y ha transitado por muchos deba-

tes. En primer término, se lo consideró un protozoo, también se pensó que podría ser un hongo y posteriormente una cianobacteria procariota. Esto se debió en parte a su imposibilidad para ser cultivado *in vitro* y a que no prolifera por inoculación en animales de experimentación^{7,8}. Por otra parte, la positividad en la tinción de colorantes para elementos fúngicos tales como PAS

y metenamina de plata también contribuyó a la posibilidad de pertenecer al reino fungi^{1,9}. El microorganismo causante de esta enfermedad fue descubierto por el argentino Guillermo Seeber a principios del siglo XX, mientras estudiaba un pólipo nasal humano¹⁰. Sin embargo, no se han reportado casos en humanos en nuestro país desde la década del '60, donde se describió un foco endémico que afectó también a animales en el norte argentino¹¹. Si bien debe plantearse la rinosporidiosis como diagnóstico en aquellos pacientes de zonas endémicas, el mismo no debe excluirse ante la falta de antecedente epidemiológico⁷. Los principales diagnósticos diferenciales son: rinoscleroma, granuloma piógeno, papilomas, angiomas y otros procesos infecciosos (coccidioidomicosis, paracoccidioidomicosis, criptococosis, aspergilosis)^{2, 5, 9}. Suele arribarse al diagnóstico ante la sospecha clínica, el patrón

morfológico distintivo en el estudio histopatológico y el dificultoso crecimiento en los cultivos *in vitro* de *R. seeberi* (herramienta valiosa frente a otras sospechas infecciosas), sin embargo, el examen histológico es considerado el método estándar de oro^{9, 12-14}. El estudio serológico carece de valor diagnóstico⁵. Presenta buen pronóstico y el tratamiento más adecuado es la resección amplia con electrocoagulación de la base^{4, 8}. Existen algunas publicaciones que indican que la terapia con dapsona por un período de 6-12 meses puede ser efectiva, especialmente en individuos con recidiva o en casos de multifocalidad¹⁵. Las posibles complicaciones son la recurrencia, diseminación local a otros sitios anatómicos y la sobreinfección bacteriana^{4, 8}. Por estos motivos debe realizarse un control clínico evolutivo.

Conflicto de intereses: Ninguno para declarar

Bibliografía

1. Kim YW, Choi SH, An J, Jung JH. A Case of Rhinosporidiosis of the Nasal Cavity. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2016; 59: 624-7.
2. Vélez A, Salazar GI, Monsalve P. Rinosporidiosis ocular, presentación de tres casos y revisión de la literatura científica. *Infectio* 2011; 15: 202-4.
3. Attri N, Solanki M, Kanojiya S. Nasal rhinosporidiosis-a clinicopathological case report. *J Med Sci Clin Res* 2019; 7: 129-34.
4. Arias AF, Romero SD, Garcés CG. Case report: Rhinosporidiosis literature review. *Am J Trop Med Hyg* 2021; 104: 708-11.
5. Fernández-Rodríguez G, Anguita SI, García Gómez J, et al. Rinosporidiosis Nasal: Presentación excepcional en España. *GAES Médica* 2017; 7: 15-6.
6. Kaluarachchi K, Sumathipala S, Eriyagama N, Atappattu D, Arseculeratne S. The Identification of the natural habitat of *Rhinosporidium seeberi* with *R. seeberi*-Specific *in situ* hybridization probes. *J Infect Dis Antimicrob Agents* 2008; 25: 25-32.
7. Capoor MR, Khanna G, Rajni, Batra K, Nair D, Venkatchalam VP, Aggarwal P. Rhinosporidiosis in Delhi, North India: Case series from a non-endemic area and mini-review. *Mycopathologia* 2009; 168: 89-94.
8. Krauss K, Bahamonde H, Karle M. Rinosporidiosis nasal. Reporte de un nuevo caso y revisión de la literatura. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2016; 76: 320-4.
9. Fanny A, Castillo A, Angulo R. Rinosporidiosis nasal: A propósito de un caso. *CIMEL* 2007; 12: 26-8.
10. Seeber G. Un nuevo esporozoario parásito del hombre. Dos casos encontrados en pólipos nasales. Tesis. Universidad Nacional de Buenos Aires. Imprenta librería "Boullosa". Buenos Aires, Argentina, 1900.
11. Niño FL, Freire RS. Existencia de un foco endémico de rinosporidiosis en la provincia del Chaco. V. Estudio de nuevas observaciones y consideraciones finales. *Mycopathol Mycol Appl* 1964; 24: 92-102.
12. Khade Archana L, Khare Manisha S, Saloni K, Akansha G, Anumeha C. Nasal rhinosporidiosis: A clinicopathological study of 9 cases. *Sch J App Med Sci* 2016; 4: 4070-3.
13. Tizzano MA, Della Vedova R, Lopez RA, et al. Equine rhinosporidiosis in Buenos Aires, Argentina. *Rev Argent Microbiol* 2022; 54: 22-4.
14. Irwin T 3rd, Pippin G, Brown J, Luer W. A Case of nasal rhinosporidiosis in the United States. *Ear, Nose Throat J* 2021. doi:10.1177/01455613211049004. Online ahead of print.
15. Job A, Venkateswaran S, Mathan M, Krishnaswami H, Raman R. Medical therapy of rhinosporidiosis with dapsona. *J Laryngol Otol* 1993; 107: 809-12.