

GRANULOMATOSIS SCHISTOSOMIASICA EN CONO MEDULAR. PRIMER CASO REPORTADO EN LA REPUBLICA DOMINICANA

Dr. Michel Kourie F. (Patólogo)
Dr. José J. Puello H. (Neurocirujano).

En el material quirúrgico que examinamos cotidianamente, resulta una rareza detectar la presencia de *Schistosomas mansoni* y sus huevos. Tal cosa fácilmente la comprobamos si establecemos que en más de 26,000 biopsias del Hospital Dr. Salvador B. Gautier, IDSS, en más de 8,000 biopsias efectuadas en el Hospital Dr. Ramón de Lara, F.A.D. y en 3,000 biopsias efectuadas en el Hospital Dr. Enrique W. Lithgow Ceara, E.N., es decir, en más de 37,000 biopsias revisadas, nunca hemos encontrado un caso.

Los casos conocidos en nuestro medio han sido detectados en su mayoría en la zona endémica de Hato Mayor, particularmente en la periferia del arroyo Pañe-Pañe. Los trabajos de investigación efectuados por Pimentel, Ponce y otros médicos dominicanos que se han dedicado al estudio de esta enfermedad, ilustran sobradamente a nuestra clase médica.

Hace escasos años encontramos un caso de Schistosomiasis en el Cono Medular de un paciente. Este caso resultó ser sorprendentemente raro por su localización, ^{1,2,3,4}, que implica un ciclo aberrante del parásito, igualmente por presentar una sintomatología de tipo pseudotumoral y finalmente por no ser este paciente precisamente de Hato Mayor, no habiéndose nunca puesto en contacto con las ríos de esa localidad.

Estos motivos han sido suficientemente importantes para llevar a la consideración de ustedes, los datos clínico-quirúrgico-patológicos de un caso, que resulta nos alarma constatar, tal como lo están estableciendo algunos de los investigadores de la Bilharziasis Dominicana, que la endemia de esta enfermedad se está extendiendo y que posiblemente lo hará progresivamente si nuestras autoridades sanitarias no despliegan todos sus recursos para combatir tal flagelo.

PRESENTACION DE CASO:

Paciente de 20 años, dominicano, natural de Higüey, se queja desde hace 6 meses de dolores en región lumbar baja, de comienzo lento y de evolución progresiva. Desde hace 3 meses presenta dolores en ambas piernas, tanto en región anterior como posterior, no estando influenciado por la postura adoptada, tos o estornudo, calmándose con analgésicos comunes. En ningún momento se pudo establecer que los dolores correspondieran a distribución ciática. Desde hace 2 meses ha tenido dificultad para iniciar la micción, teniendo retención urinaria en 3 ocasiones, necesitando recurrir a sondeo vesical. En el último mes presentaba parestesia en ambas piernas manifestada como "adormecimiento de las mismas". Ha perdido unas 12 libras des-

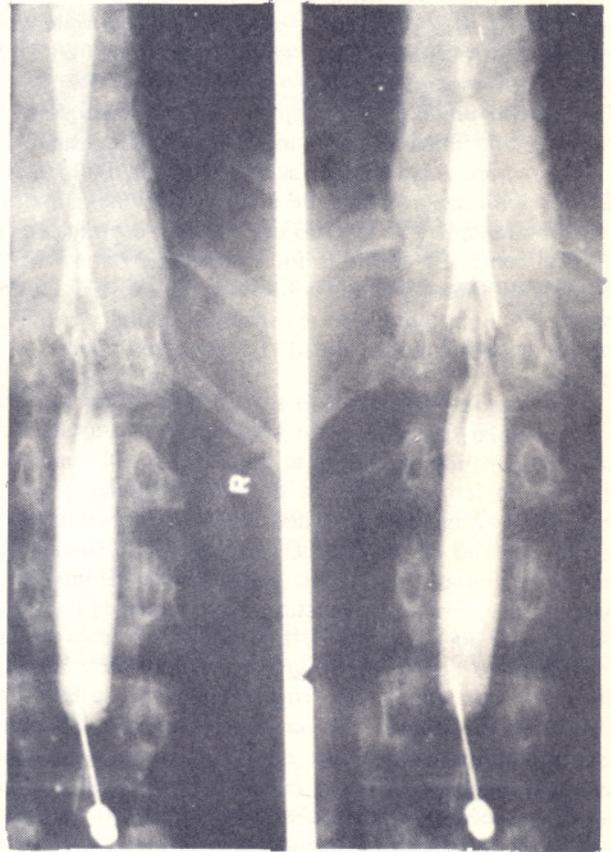


FIGURA No.1:
Mielografía con defecto del llenado del medio de contraste a nivel de T12 y L1, correspondiendo a la lesión del paciente.

de el inicio de su padecimiento. Los antecedentes personales y familiares carecen de interés.

El examen físico reveló un joven ligeramente pálido, cooperador e inteligente, bien orientado en tiempo y espacio, sin signos que revelaran trastornos del lenguaje. Pares craneanos intactos, sin signos de lesión cerebelosa; extremidades superiores normales. En las extremidades inferiores encontramos debilidad moderada de la flexión y extensión del muslo sobre la pelvis, rodillas y pies. Podía caminar con manifiesta dificultad. Obviamente estamos frente a una paraparesis inferior. Los reflejos patelares estaban aumentados, los aquilianos ausentes y el reflejo plantar era extensor a la derecha y equívoco a la izquierda. La sensibilidad termoalgésica estaba disminuída en pierna derecha

hasta la raíz del muslo, con disminución notable de la sensibilidad profunda (sentido de vibración y posición) en la pierna izquierda. El esfínter anal tenía buen tono, aunque había estreñimiento desde hacía un mes. El resto del examen físico no mostró otras anomalías excepto soplo de eyeción sobre punta del corazón, sin importancia cardiológica. Su P/A fue de 110/70 y el pulso de 84/minutos.

El hemograma mostró 16 eosinófilos y Hb de 76.5 o/o sin hipocromía celular. Glicemia, Urea, Electrolitos, Urianálisis, Transaminasas, Nitrógeno Uréico, Colesterol, Radiografías de columna dorsolumbar, tórax y cráneo fueron todos normales. La investigación de parásitos en heces fue negativa. El día siguiente a su admisión una mielografía mostró obstrucción parcial "en reloj de arena" en L12 y L1. El LCR mostró 850 mg de proteínas y 3 linfocitos. El paciente fue explorado bajo la impresión de que se trataba de una masa tumoral intradural pero extramedular.

Operación: Laminectomía Dorsolumbar D11, D12 y L1 con extirpación parcial de una tumoración o granuloma en Cono Medular. Se efectuó una incisión centrada en D11 verticalmente. La anestesia fue normal. Se removieron las apofisis espinosas y láminas de D11, D12 y L1. La duramadre no lucía tensa y en el espacio subdural y extradural no se encontró anomalía. La grasa extradural estaba presente.

Al abrir la duramadre no se constató tumor intradural extramedular, pero el Cono Medular lucía anormalmente abultado, pálido y con tinte amarillento. Obviamente se trataba de lesión intrínseca de Cono Medular y con esa impresión se incindió a la derecha del surco colateral posterior derecho de la médula. Previamente se canalizó esta porción abultada con aguja hipodérmica calibre 27, sin encontrarse formación quística. Al extender la incisión en la médula por 1.5 cm., verticalmente, notamos material necrótico parduzco, no sangrante, a 2mm. de la superficie medular. Con ayuda del "rogeur" pequeño se extirparon pequeños fragmentos con sangramiento nulo. Se obtuvo extirpación parcial ya que no había buena delimitación entre el tejido de aspecto necrosado y el tejido medular sano. La condición del paciente era satisfactoria al finalizar la operación y nuestra impresión en ese momento era que se trataba de un Ependimoma del Cono Medular.

EXAMEN ANATOMOPATOLOGICO:

Macroscopía: Se reciben 3 fragmentos blanco-grisáceos, blandos, que miden entre 0.5 y 1.4 cm. Se acompañaban de pequeño fragmento óseo.

Microscopía: Las secciones mostraban médula espinal correspondiente al cono con un infiltrado granulomatoso multifocal constituido por células epitelioides, linfocitos y células gigantes. Este tipo de infiltrado semeja pseudotubérculos y en ocasiones rodean huevos de Schistosomas Mansonii. No hay parásitos adultos. Estos huevos mostraban distintos grados de destrucción y muy ocasionalmente calcificaciones. En algunas áreas se observaban macrófagos en empalizadas rodeando huevos; en otras áreas se observaba fibrosis y en otras necrosis. Hay un discreto infiltrado eosinofílico. Algunos de los fragmentos mostraban reacción glial de la substancia nerviosa. Se descartó neoplasias en los cortes.

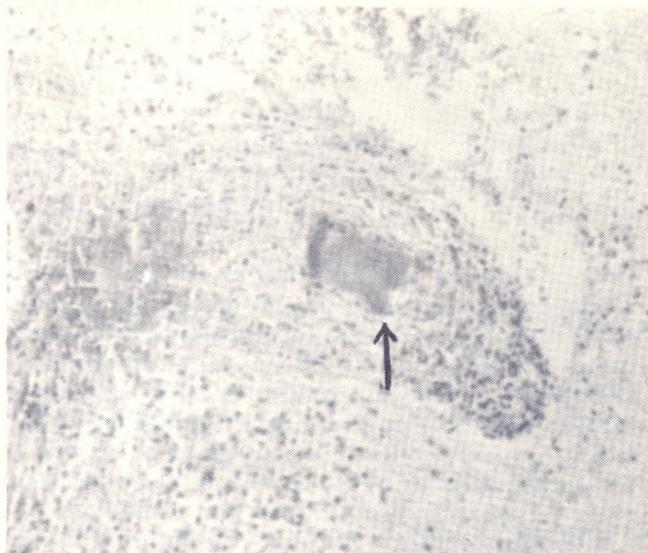


FIGURA No.2:

Huevo de *S. Mansonii* en Médula Espinal con granuloma macrofágico periférico. Nótese espolón lateral en huevo (flecha). Además del granuloma se aprecia necrosis. H. x E. 100 x.

Diagnóstico: Granuloma Schistosomíaco en Cono Medular.

COMENTARIOS Y CONSIDERACIONES:

La granulomatosis Schistosomíaca en médula espinal es una rareza,^{1,2,3,4} sin embargo, constituye la localización más frecuente de los granulomas ectópicos sintomáticos. Marcial-Rojas^{2,3} en Puerto Rico revisando la literatura hasta 1963 encuentra tan solo 97 casos con involucramiento neurológico. De éstos, 60 eran por *S. Japonicum* de los cuales 11 presentaban involucramiento medular; 11 eran por *S. Hematobium* de los cuales 3 mostraban lesión medular y 26 eran por *S. Mansonii* de los cuales 17 afectaban la médula espinal. En total 27 casos lesionaban la médula. (Cuadro I). Es interesante señalar que la mayoría de estos

CUADRO I

	Involu. Neurol.	Involu. Medular
<i>S. Japonicum</i>	60	11
<i>S. Hematobium</i>	11	8
<i>S. Mansonii</i>	26	17
Total	97	27

casos medulares mostraban sintomatología del tipo Mielitis Transversa y que solo 3 casos mostraron compresión pseudotumoral, tal como sucedió en nuestro caso. Herskonitz en 1972 en su serie de 104 casos encontró 29 casos con afectación medular. (Cuadro II). La Schistosomiasis Granulomato-

CUADRO II

	Involu. Cerebro	Involu. Medular	Involu. Cerebro-Medular
S. Japonicum	58	1	1
S. Hematobium	3	9	2
S. Mansoni	11	19	—
Total (104)	72	29	3

El-Bahwany (Octubre de 1973)
5to. Congreso Mundial de Neurología: 1 caso medular

sa Ectópica puede verse en menor número de casos en cualquier órgano de la economía, pudiendo lesionar inclusive al corazón. Se han reportado casos localizados en Cerebro, Cuello Uterino, Trompas de Fallopio y Epidídimo. 5,6,7

La investigación minuciosa de este caso muestra categóricamente que el paciente jamás se bañó en los ríos de Hato Mayor, estableciéndose que en Higuey se bañó en los ríos Sanate, Luisibani, Duey, Salto de Anamuya y Yoná. De éstos el primero ha sido considerado como infestado, debiéndose efectuar una investigación de los restantes.

El *Schistosoma Mansoni* no parece ser autóctono de América sino que probablemente llegó de Africa en la época de la trata de esclavos. En el continente Americano se encuentra mayormente en las islas del Caribe, América Central y del Sur, especialmente Brasil, Venezuela, Puerto Rico, Guayanas y República Dominicana. 8,9,10,11,12,13.

Diagnóstico: El diagnóstico se establece según las siguientes métodos:

a) Coproscopía. El examen de las heces por técnicas especializadas, en particular la de Maldonado, muestra huevos de *Schistosomas*. Se requieren exámenes sucesivos obteniéndose un 31 o/o de positivos en un primer examen, 41 o/o en un segundo y 47 o/o en un tercero.

b) Biopsia. La rectal 14,15 resulta una de las más valiosas y debe hacerse a 9 cm. del ano, obteniéndose solamente mucosa y submucosa; las más profundas pueden ser peligrosas a causa de sangramiento. Las biopsias hepáticas y ganglionares pueden revelar la enfermedad. En las primeras se prefiere biopsia a cielo abierto o con laparoscopia. Ocasionalmente se hace el diagnóstico estudiando órganos extirpados por otros motivos, tales como apéndice, vesícula, colon, útero y ovarios.

c) Test intradérmico. Muy útil y poco costoso, muestra reacción cutánea de 15–20 minutos después de la inyección del antígeno, extraído preferentemente del vermex,

adulto. La reacción se hace positiva de 4–8 semanas después de la exposición a las cercarias y persiste años, aún con tratamiento exitoso. Positividad de 70–97 o/o.

d) Test de Fijación del Complemento y Test de la Reacción Circunoval, 16,7 que no se hacen en nuestro medio. El primero es positivo en un 100 o/o antes de los 3 años y en un 45 o/o después de los 10 años. El segundo es muy útil para determinar el éxito del tratamiento, basándose en la presencia de un anticuerpo gama-globulina en el suero sanguíneo. El test se hace negativo 8 meses después de la muerte del huevo y 9 meses después de la desaparición del parásito hembra. El test es específico permitiendo además distinguir las distintas especies del *Schistosoma*.

Tratamiento: Se utilizan los antimoniales y recientemente una nueva droga, la Mycanthone, que es la más prometedora de todas, 17,18,19,20,21,22,23,24,25 Dosis oral de 2–3 mg/kg. de peso de 3–5 días. Puede usarse una sola dosis intramuscular de 3.5–4 mg/kg.

Pronóstico: Bueno en la mayoría de los casos y sombrío en casos con involucramiento hepático avanzado, cuando hay marcada lesión pulmonar con producción de Cor Pulmonar y cuando los granulomas afectan órganos vitales.

CONCLUSIONES:

1.— Se diagnostica un Granuloma Schistosomiasico en Médula Espinal, siendo el primer caso reportado en R.D.

2.— El caso resulta más excepcional por su sintomatología de tipo Pseudotumoral.

3.— La procedencia del paciente y su contacto con los ríos señalados, obligan a la investigación de nuevas áreas endémicas.

4.— La extensión de la endemia constituye una alarmante perspectiva que Salud Pública tendrá que afrontar decidida y prontamente, considerando, según la opinión de entendidos en la materia que los caracoles intermedios se encuentran bastantes diseminados en el territorio nacional.

5.— La creación de las Presas de Taveras y Valdesia, que constituyen un logro extraordinario en el desarrollo socio-económico de nuestro país, es en la opinión de expertos en Bilhariosis (particularmente en Puerto Rico), posibles zonas futuras de endemia, tal como sucedió en la presa de Asúan en Egipto, debiéndose preveer sanitariamente tal circunstancia. 26

6.— Es imprescindible que nuestras autoridades médicas se provean del asesoramiento técnico y de las substancias químicas indispensables, para efectuar todas las pruebas necesarias para el diagnóstico de esta enfermedad, así como de drogas modernas, como el Mycanthone, para evitar daños que pudieran alcanzar grados catastróficos en nuestro país.

BIBLIOGRAFIA

- 1.— Hurbe, J.: Data concerning the cycle of schistosoma mansoni, Southern Med. J., 2: 1824, 1902.
- 2.— Marcial-Rojas, R. A. and Fiol, R. E.: Neurologic complication of Schistosomiasis. Review of the literature and report of two cases of transverse myelitis due to S. Mansoni. Ann. Int. Med., 59: 215, 1963.
- 3.— Marcial-Rojas, R. A.: Pathology of Protozoal and Helminthic Diseases. P. 373. Ed. William & Wildins, Co., 1971.
- 4.— Wright, C. A.: The schistosome life cycle. In Bilharziasis, ed. by Mostofi, F. K., p.3. Springer-Verlag. New York, 1967.
- 5.— Andreade, Z. A. and Cheever, A. W.: Clinical and pathological aspects of schistosomiasis in Brazil. In Bilharziasis, ed. by Mostofi, F. K. p. 157. Springer-Verlag, New York, 1967.
- 6.— Dew, H. R.: Observations on the pathology of schistosomiasis (S. Haematobium and S. Mansoni) in the human subjects. J. Path. Bact. 26: 27, 1923.
- 7.— Toro-Goyco, F.: Circumoval precipitins: Localization by filtration in serum of human infected with S. Mansoni. Proc. Exp. Biol. Med., 117: 923, 1964.
- 8.— De Paola, D. and Winslow, D. J.: Geografic pathology of schistosomiasis mansoni. In Bilharziasis, ed. by Mostofi, F. K., P. 212. Springer-Verlag, New York, 1967.
- 9.— Faust, E. C. and Hofman, W. A.: Studies on schistosomiasis mansoni in Puerto Rico I—III. Puerto Rico J. Public Health and Trop. Med., 10:1, 1934.
- 10.— Leiper, R. T.: Report of the results of the Bilharzia Mission in Egypt. London, 140, pp. 1915—1918.
- 11.— Manson, P.: Report of a case of bilharz ia from West Indies. Brit. Med. J., 2: 1894, 1902.
- 12.— Maldonado, J. F.: Schistosomiasis in America. Editorial Científico Médica, Barcelona, 1967.
- 13.— Pirajá Da Silva, M. A. La schistosome a Bahia. Arch. Parasit, 13:415, 1908.
- 14.— Pontes, J. T.: Rectosigmoidoscopic aspect of mansonian Schistosomiasis in Brazil (abstr.). Gastroenterology, 43: 244, 1961.
- 15.— Ragheb, M: Shistosomiasis of the colon. In Wold Congress of Gastroenterology. Abstract of Scientific Papers, p. 62, Washington, D. C. May 25—31, 1968.
- 16.— Chafee, E. F., Bauman, P. M. and Shapilo, J. J.: Diagnosis of shistosomiasis by complement-fixation. Amer. J. Trop. Med. Hyg., 3:905, 1954.
- 17.— Dennis, E. W., Archer, S. and Kobus, W.: Chemotherapy of schistosomiasis (past and present) with special reference to hycanthone. 2nd. Symposium on Schistosomiasis. Salvador, Brazil, July 2—6, 1969.
- 18.— Clarke, V. de V., Blair, D. N. and Weber, M. C.: Field trial of hycanthone (Etenol Winthrop) in the treatment of urinary and intestinal bilharziasis. Central Afr. J. Med., 15: 1, 1969.
- 19.— Berberian, D. A., Freele, H., Rosi, D. Dennis, E. W. and Archer, S.: A comparison of oral and parenteral activity of hycanthone and lucanthone in experimental infections with schistosoma Mansoni, Amer. J. Trop. Med. Hyg. 16: 487, 1967.
- 20.— Figueiredo, J. F. M., Carvalho, E. A., Carvalho, J. S., Macedo, V., Gonzlaves, H. J. D. and Montenegro, M. A.: Tolerabilidade do hycanthone e resultados preliminares quanto a sua eficacia no tratamento da esquistosomose mansoni. Gaz. Med. Bahia, 68: 124, 1968.
- 21.— Katz, N., Pellegrino, H., Ferreira, M. T. Oliveira, C. A., and Dias, C. B.: Preliminary Clinical trails with hycanthone, a new antischistosomal agent. Amer. J. Trop. Med. Hyg. 17: 743, 1968.
- 22.— Katz, N. and Pellegrino, J.: Ensaio laboratorial e clinico com hycanthone novo agente esquistossomicida. Rev. Soc. Brasi. Med. Trop., 1:219, 1967.
- 23.— McMahon, J. E. and Samatta, C. M.: Preliminary Observation on the use of Hycanthone in Bilharziasis. East African Conference, Dares-Salaam, 1969.
- 24.— Olivier, L. J.: Hycanthone. A new drug for treatment of Schistosomiasis. Brief summary. Pan Amer. Health Or. WHO Sept. 1969.
- 25.— Rosi, D., Peruzzotti, G. ? Dennis, E. W. Berberian, D. A., Freele, H., Tullar, B. F. and Archer, S., Hycanthone. A. New active metabolite of lucanthone. J. Med. Chemo. 10: 867, 1967.
- 26.— Kloetzel, K.: A suggestion of the PREVENTION OF SEVERE CLINICAL FORMS OF SHISTOSOMIASIS MANSONI. Bull. Who, 37: 686, 1967.