

Esparganosis cerebral. Presentación de un caso pediátrico

Cerebral sparganosis in a child. Case report

Dra. Marta C. Jones^a, Dra. María Rosa Agosti^a, Dr. Marcelo D'Agustini^a, Dra. Valeria Uriarte^a y Dr. Ricardo Drut^a

RESUMEN

Se presenta el caso de un niño de 8 años con antecedentes de epilepsia en quien el examen anatomopatológico del material extraído de una lesión de 2,5 por 3 cm localizada en la zona corticosubcortical del lóbulo occipital derecho reveló la presencia de un proceso inflamatorio crónico granulomatoso con una larva de *Spirometras pp*. El paciente nació y vivió varios años en una zona rural de Tarija (Bolivia).

Es el primer ejemplo pediátrico de esta infestación parasitaria a nivel cerebral reconocido en la Argentina.

Palabras clave: *esparganosis, granuloma, infestación parasitaria.*

ABSTRACT

We are reporting the case of an 8-year-old boy with history of seizures in whom the pathology exam of 2.5 by 3 cm surgical specimen obtained from a cortical-subcortical area of the right occipital lobe showed a chronic granulomatous inflammatory process with a *Spirometras pp* larva. The patient was born and lived several years at a rural area of Tarija (Bolivia). This appears to represent the first reported case of this parasitic infection localized to the brain of a child in Argentina.

Keywords: *granuloma, parasitic infection, sparganosis.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2013.e1>

INTRODUCCIÓN

La esparganosis es una parasitosis causada por la larva de un cestodo del género *Spirometra*, familia *Diphyllobotridae*, orden *Pseudophyllidea*. Esta larva también es conocida con el nombre genérico de espargano, del cual toma la denominación la enfermedad. Aunque hay varias especies del género *Spirometra*, la mayoría de las infestaciones en el ser humano son causadas por la larva de los cestodos adultos *Spirometra mansoni* y *Spirometra erinacei*. En Sudamérica, la especie más frecuente es *S. mansonioides*.¹

Si bien la localización más común es la cutánea, en las últimas décadas se han notificado casos de esparganosis extracutánea en China,² India,³ América del Norte,⁴ Europa⁵ y Latinoamérica.⁶⁻¹⁰ Esta situación es atribuible al uso de la tomografía computarizada (TC), la resonancia magnética (RM) y los métodos serológicos específicos (ELISA). Cabe aclarar que los casos cutáneos son los que más se diagnostican, lo que no implica que los pacientes no puedan presentar larvas viscerales, no diagnosticadas o asintomáticas.

En la Argentina no se han identificado pacientes pediátricos con esparganosis cerebral. Los únicos casos referidos correspondieron a dos adultos. Uno de ellos correspondió a un paciente peruano que presentó localización cutánea,⁷ mientras que el otro, con localización cerebral, se observó en un paciente paraguayo.⁸

Presentamos el caso de un niño con esparganosis cerebral que se manifestó como una lesión intraparenquimatosa subcortical pseudotumoral, que causó convulsiones recurrentes y cefalea persistente.

CASO CLÍNICO

Un niño de 8 años fue asistido desde noviembre de 2011 por presentar episodios convulsivos con diagnóstico de epilepsia parcial sintomática. La RM de cerebro evidenció un nódulo con señal heterogénea de 15 mm de diámetro en el lóbulo parietal derecho, a nivel corticosubcortical, con edema vasogénico perilesional y realce intenso tras la administración del contraste (*Figura 1*). Con la sospecha de neurocisticercosis fue internado para iniciar tratamiento.

Antecedentes de la enfermedad actual: a la edad de un año presentó convulsión tónico-clónica generalizada, con cefaleas recurrentes seguidas de vómitos. Desde junio de 2011 presentó convulsiones tónico-clónicas generalizadas, diarias, con paresia del miembro superior izquierdo luego del episodio. El niño no fue evaluado por profesionales hasta noviembre de 2011.

Antecedentes epidemiológicos: nació y fue criado en una zona rural de Tarija (Bolivia), en convivencia con cerdos, con los que la familia se alimentaba frecuentemente.

a. Hospital de Niños Superiora Sor María Ludovica. La Plata, provincia de Buenos Aires.

Correspondencia:
Dra. Marta C. Jones: marcelinjoness@gmail.com

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 18-7-2012
Aceptado: 25-9-2012

Antecedentes familiares: la madre padece la enfermedad de Chagas. El padre y los hermanos están sanos. El tío materno tenía historia de episodios convulsivos de varios años de evolución.

Los siguientes son los resultados principales de los estudios de laboratorio realizados en el momento del ingreso (7/12/2012): hemograma: leucocitos $6200/\text{mm}^3$, neutrófilos 35%, linfocitos 48%, eosinófilos 13%, hematocrito 35%, hemoglobina 11,5 g/dl, plaquetas $293\ 000/\text{mm}^3$, TGP 25 UI/L, TGO 26 UI/L, CPK 90 UI/L, LDH 498 UI/L, urea 0,39 g/L, creatinina 0,47 mg/dl.

Estudio citoquímico de LCR: límpido, incoloro, 3 elementos/ mm^3 , glucorraquia 0,5 g/L, proteínas 0,30 g/L.

Estudios serológicos: IgM e IgG toxoplasmosis, CMV: negativos. ELISA y TIF para enfermedad de Chagas: negativos. VDRL cuantitativa: no reactiva. Ac para HTLV 1 + 2 negativo. ELISA HIV no reactivo. HBsAg y anti-HBc no reactivo HVC IgG: no reactivo.

El paciente recibió tres ciclos de albendazol. Posteriormente, la RM mostró una imagen heterogénea, hipointensa en secuencias T2 e isointensa en secuencias T1, de 11 por 13 milímetros a nivel

del lóbulo occipital derecho. Presentaba realce nodular luego de la administración de gadolinio y en su interior, imágenes hipointensas vinculadas a depósitos de calcio, y edema vasogénico sin desviación de la línea media.

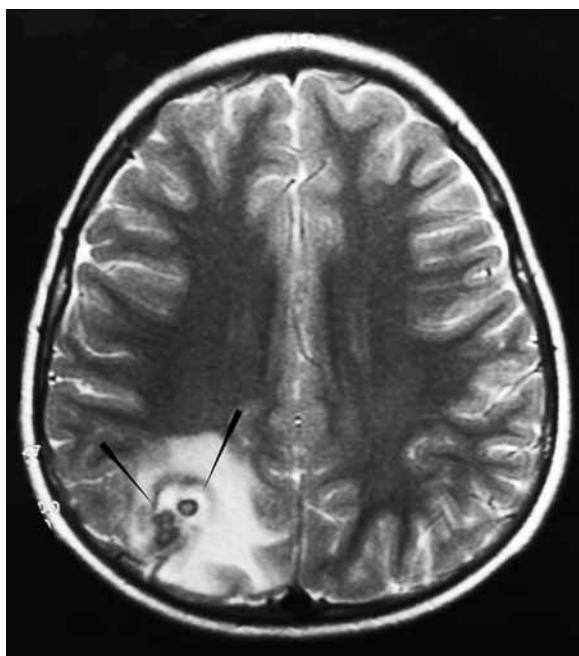
El electroencefalograma reveló una acentuada desorganización difusa de la actividad de fondo, con predominio posterior de actividad lenta irregular theta y delta en el área occipital derecha.

El estudio para cisticercosis (ELISA) fue negativo.

Con los diagnósticos presuntivos de infección o tumor cerebral se decidió realizar una biopsia a cielo abierto con guía estereotáctica. Se localizó con exactitud una lesión con marcada consistencia periférica que se reseccó en su totalidad en un bloque de 2,5 por 3 cm.

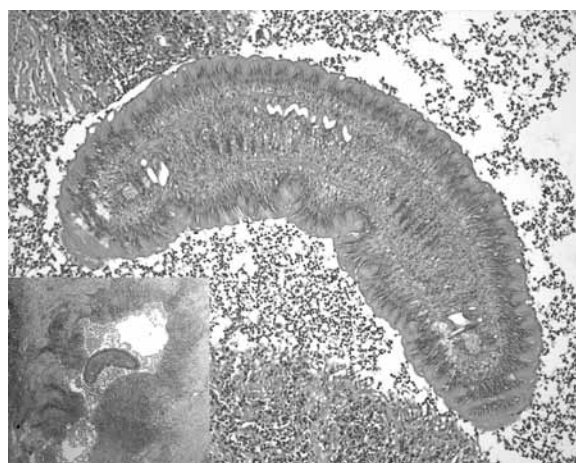
Previa fijación en formol buffer 0,2 M pH 7,4 y coloración con hematoxilina-eosina, PAS y Grocott, el estudio anatomopatológico mostró un proceso inflamatorio crónico con granulomas abscedados confluentes (Figura 2), y áreas de tejido colágeno denso que en sectores formaba esferas compactas a la manera de granulomas cicatrizados. Los granulomas estaban formados por

FIGURA 1. Resonancia magnética



Cavidades correspondientes a una estructura tuneliforme (signo del túnel) en el lóbulo occipital derecho, resultante de la presencia del parásito (flechas).

FIGURA 2. Imagen microscópica de la larva parasitaria con importante preservación de su estructura



La parte exterior del parásito muestra una cubierta cutánea lisa, no segmentada, sin glándulas. Subyacente a ella se observa un estroma laxo surcado por haces de fibras musculares longitudinales paralelas y espacios con líquido. Se destaca la ausencia de cavidad central. Figura incluida: el parásito se localiza en el centro de un proceso inflamatorio crónico granulomatoso abscedado, correspondiente al túnel visible en la resonancia magnética. HE, 100x. Figura incluida HE, 40x.

linfomonocitos, células plasmáticas y leucocitos polimorfonucleares con abundantes eosinófilos. Una de las áreas de abscedación con cavitación contenía una pequeña estructura larvaria de 1 mm de longitud (Figura 2), con fenotipo de un cestodo del género *Spirometra*. Si bien no pudo determinarse la especie, por la morfología se descartó que se tratara de la especie *Proliferum*, y por el tamaño fue diagnosticada como larva.

El paciente regresó para control en mayo de 2012 y se constató un examen neurológico normal.

DISCUSIÓN

La esparganosis humana es bastante infrecuente, aunque difundida en todo el mundo y particularmente en Asia. En China se han documentado más de 1000 casos.² La edad de los pacientes varía desde meses hasta 62 años; la mayor tasa de infestación se produce entre los 10 y los 30 años de edad y la razón hombre/mujer es de 2:1.

La localización cerebral representa el 2,3% de todos los casos publicados.¹¹ Su incidencia en nuestro medio está relativizada debido a la ausencia de manifestaciones clínicas características y, desde el punto de vista histológico, por la presencia de una respuesta granulomatosa, inespecífica si no se logra visualizar el parásito. En la gran mayoría de los casos el diagnóstico de estas formas cerebrales es posquirúrgico e histopatológico.¹²

El ciclo comienza cuando el cestodo adulto, que habita en el intestino de mamíferos carnívoros, como cánidos y félidos, produce huevos que contaminan el agua dulce. De ellos nacen formas ciliadas llamadas coracidios, que son ingeridos por el primer huésped intermediario, una subclase de crustáceos copépodos del género *Cyclops*. Allí se transforman en larvas procercoides, las cuales son ingeridas por huéspedes intermediarios secundarios (ofidios, pájaros, ranas o mamíferos) y se transforman en larvas plerocercoides o esparganos, que llegan al intestino de cánidos o félidos por ingestión de carne cruda del huésped secundario infestado, dando lugar allí al crecimiento del cestodo adulto y cerrando de este modo el ciclo vital del parásito.

Las dos vías principales de infestación humana por larvas plerocercoides son la penetración por la piel y las mucosas, y la ingestión de alimentos crudos o agua contaminada con las larvas.⁸ También puede ocurrir la infestación por procercoides cuando se ingiere agua contaminada con crustáceos que contienen esas larvas. El período de supervivencia de los esparganos en el hombre puede extenderse hasta 20 años.¹²

Todavía no está claro cómo el parásito llega al cerebro. Basados en publicaciones y observaciones de esparganosis en la cavidad abdominal, la pleura, el cuello y la médula espinal, Deng et al. proponen que después de ser ingerido, el espargano llega a la cavidad abdominal, penetra en el diafragma y el mediastino, y llega al cuello, donde migra a través de los espacios perivascuales. Después de pasar por el agujero occipital, el foramen oval o el agujero yugular, el espargano ingresaría en la cavidad craneal y el cerebro.¹¹ Las manifestaciones clínicas más frecuentes son convulsiones seguidas de hemiparesia, cefalea progresiva y alteración parcial de la conciencia.¹³ Las lesiones se localizan principalmente en los lóbulos parietal, occipital y frontal, y en los ganglios basales.

Generalmente los pacientes tienen eosinofilia y ausencia de fiebre. Los estudios por imágenes muestran áreas de baja densidad, el signo del túnel (correspondiente a los abscesos cavitados visibles en la biopsia), lesiones en rosario o nodulares, y calcificaciones.^{3,11} La presencia de estas dos últimas características suele generar el diagnóstico diferencial con el tuberculoma.^{3,12} El reconocimiento de la migración de la lesión en la secuencia de exámenes de imágenes indica la presencia de una larva viva.^{14,15} Es difícil confirmar la enfermedad en la etapa preoperatoria, y en algunas circunstancias se plantea el diagnóstico diferencial con tuberculosis o neoplasia.

La intervención quirúrgica suele realizarse a cielo abierto o, en los medios más experimentados, por medio de cirugía estereotáctica.¹¹ La primera permite una resección completa curativa, aunque es difícil la localización en profundidad cuando una lesión pequeña no tiene representación cortical. Por su parte, la segunda permite localizar con certeza la lesión en profundidad, pero debe ser realizada por cirujanos con experiencia en el procedimiento. Tiene además el inconveniente de que, con frecuencia, la lesión presenta una importante fibrosis que dificulta la penetración de la aguja. La anatomía patológica muestra un proceso inflamatorio crónico granulomatoso con células plasmáticas y eosinófilos, y marcada colagenización. Las áreas de cavitación presentes suelen contener el cestodo en estado larvario.

La esparganosis cerebral en la infancia es un trastorno raro.^{14,15} Nuestro caso representa un ejemplo característico de esta enfermedad, por las manifestaciones clínicas, los estudios por imágenes y los hallazgos anatomopatológicos. Sin embargo, dados el tamaño y las características histológicas, creemos que el parásito infestan-

te correspondió a una larva procercoide y, por lo tanto, la vía de contagio debió ser la ingestión de agua contaminada con crustáceos infestados. Aun en el caso de que el contagio haya sido por larvas procercoides, el término esparganosis es adecuado para este tipo de infestación. El reconocimiento específico (ELISA) no se realizó antes de la intervención quirúrgica porque no se sospechó la presencia del parásito debido a la rareza en este medio. No hemos determinado aún la especie de *Spirometra* por métodos moleculares. Para la extracción se usó una combinación de los métodos quirúrgicos a cielo abierto y guía por estereotaxia. La resección es preferible al tratamiento farmacológico porque no sólo facilita el diagnóstico, sino que también permite la curación de la enfermedad en la mayoría de los casos, como sucedió en el nuestro.

Cabe hacer notar que la enfermedad es infrecuente en Argentina y que en el presente caso, como sucedió en los publicados por De Roodt et al. y Boero et al.,^{7,8} el hallazgo fue posible por la migración y posterior radicación de pacientes extranjeros en nuestro país. No se hallaron referencias bibliográficas procedentes de Bolivia en la bibliografía a nuestro alcance. Dada la intensa migración entre los países de América Latina en los últimos años, es posible que esta entidad comience a verse con mayor frecuencia.

Agradecimientos

A la colaboración de la Dra. Bárbara Tornese-llo en el acto quirúrgico, de la Dra. Mariel Karina García y del Dr. Juan Carlos Daniel Morales en la atención al paciente en la Sala de Enfermedades Infecciosas, y a la asistencia técnica de Adriana Mijalowsky y Marina Valencia en la realización de los preparados histológicos. ■

BIBLIOGRAFÍA

- Gutiérrez Y. Diagnostic pathology of parasitic infections with clinical correlations. Philadelphia: Lea & Febiger; 1990. Págs. 452-9.
- Li MW, Song HQ, Li C, Lin HY, et al. Sparganosis in mainland China. *Inter J Infect Dis* 2011;15(3):e154-6.
- Rengarajan S, Nanjgowda N, Bhat D, Mahadevan A, et al. Cerebral sparganosis: a diagnostic challenge. *Br J Neurosurg* 2008;22(6):784-6.
- Walker MD, Zunt JR. Neuroparasitic infections: cestodes, trematodes, and protozoans. *Semin Neurol* 2005;25(3):262-77.
- Pampiglione S, Fioravanti ML, Rivasi F. Human sparganosis in Italy. Case report and review of the European cases. *APMIS* 2003;111(2):349-54.
- Mentz MB, Procianny F, Maestri MK, Rott MB. Human ocular sparganosis in southern Brazil. *Rev Inst Med Trop São Paulo* 2011;53(1):51-3.
- De Roodt AR, Suárez G, Ruzic A, Bellegarde E, et al. A case of human sparganosis in Argentina. *Medicina (B Aires)* 1993;53(3):325-8.
- Boero AM, Garaguso P, Navarré J. A case of cerebral sparganosis in South America. *Arq Neuropsiquiatr* 1991;49(1):111-3.
- Sakamoto T, Gutierrez C, Rodriguez A, Sauto S. Testicular sparganosis in a child from Uruguay. *Acta Trop* 2003;88(1):83-6.
- Landero A, Hernandez F, Abasolo MA, Rechy DA, Nuñez P. Cerebral sparganosis caused by *Spirometramansonoides*. Case report. *J Neurosurg* 1991;75(3):472-4.
- Deng L, Xiong P, Qian S. Diagnosis and stereotactic aspiration treatment of cerebral sparganosis: summary of 11 cases. *J Neurosurg* 2011;114(5):1421-5.
- Duggal S, Mahajan RK, Duggal N, Hans C. Case of sparganosis: a diagnostic dilemma. *Indian J Med Microbiol* 2011;29(2):183-6.
- Ou Q, Li SJ, Cheng XJ. Cerebral sparganosis: A case report. *Biosci Trends* 2010;4(3):145-7.
- Kim CY, Cho BK, Kim IO, Hwang YS, Wang KC. Cerebral sparganosis in a child. *Pediatr Neurosurg* 1997;26(2):103-6.
- Bo G, Xuejian W. Neuroimaging and pathological findings in a child with cerebral sparganosis. Case report. *J Neurosurg* 2006;105(6):470-2.