



Acta de Otorrinolaringología & Cirugía de Cabeza y Cuello

www.revista.acorl.org.co



Reporte de caso

Estenosis laringotraqueal recurrente asociada a *Klebsiella pneumoniae* subsp. *rhinoscleromatis*

Recurrent laryngotracheal stenosis associated with *Klebsiella pneumoniae* subsp. *rhinoscleromatis*

Larry Luber Martínez Rosado*, Diana Patricia Pérez Villegas**, Adriana Yelitza Isaza Marín***, Manuela Hurtado González****, Alejandra Mendoza Gallego*****

* Servicio de infectología, Equipo Latinoamericano de Investigación en Infectología y Salud Pública ELISAP, Hospital La María, Antioquia, Colombia. ORCID: <https://Orcid.Org/0000-0001-9368-4218>

** Servicio de otorrinolaringología Hospital La María, Antioquia, Colombia. ORCID: <https://Orcid.Org/0000-0002-9968-8495>

*** Servicio de otorrinolaringología Hospital La María, Antioquia, Colombia. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2769-6135>

**** Residente de otorrinolaringología Universidad de Antioquia. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-6823-0548>

***** Residente de otorrinolaringología Universidad de Antioquia. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2798-7987>

Forma de citar: Martínez-Rosado LL, Pérez-Villegas DP, Isaza-Marín AY, Hurtado-González M, Mendoza-Gallego A. Estenosis laringotraqueal recurrente asociado a *Klebsiella pneumoniae* subsp. *rhinoscleromatis*. Acta otorrinolaringol. cir. cabeza cuello. 2023;51(4): 301-304. DOI.10.37076/acorl.v50i4.685

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 13 de Julio de 2022

Evaluado: 10 de Noviembre de 2023

Aceptado: 12 de Diciembre de 2023

Palabras clave (DeCS):

Klebsiella pneumoniae,
laringoestenosis, rinoscleroma.

RESUMEN

Introducción: *Klebsiella rhinoscleromatis* (KR) es una enterobacteria asociada con formación de granulomatosis crónica. Cuando este microorganismo afecta el tracto respiratorio se denomina escleroma, afectando principalmente la cavidad nasal; puede comprometer nasofaringe, laringe, tráquea y bronquios. **Caso clínico:** paciente femenina con antecedente de laringotraqueítis crónica con diagnóstico de estenosis traqueal y aislamiento en cultivos de *Klebsiella pneumoniae ssp rhinoscleromatis multisensible*, sin compromiso nasosinusal o extralaringeo. **Discusión:** el escleroma puede afectar todo el tracto respiratorio y se deben tener presentes factores de riesgo asociados, como condiciones de hacinamiento, inmunosupresión y sexo femenino. El pilar del tratamiento es médico, basado en antibióticos; adicionalmente, se reserva manejo quirúrgico en la etapa esclerótica, donde hay ausencia del fenómeno inflamatorio. **Conclusión:** el escleroma es una patología rara con una evolución crónica y compromiso principalmente en cavidad nasal, que requiere alta sospecha diagnóstica para realizar manejo oportuno.

Correspondencia:

Aleandra Mendoza Gallego

E-mail: aleja.mendoza27@gmail.com

Dirección: calle 75 sur #54 A 150 Edificio Fiori, Itagüí Antioquia

Teléfono celular: 3003410549

ABSTRACT

Key words (MeSH):

Klebsiella pneumoniae,
laryngostenosis, rhinoscleroma.

Introduction: *Klebsiella rhinoscleromatis* (KR) is an enterobacterium associated with the formation of chronic granulomatosis. When this microorganism affects the respiratory tract, it is called scleroma, the nasal cavity is the main one affected; additionally, it can involve nasopharynx, larynx, trachea, and bronchi. **Clinical case:** female patient with a history of chronic laryngotracheitis, with diagnosis of tracheal stenosis and isolation in cultures of multisensitive *Klebsiella pneumoniae* ssp *rhinoscleromatis*, without nasosinus or extralaryngeal involvement. **Discussion:** scleroma can affect the entire respiratory tract, so associated risk factors should be taken into account, mainly overcrowding, immunosuppression, and female sex, in whom it is more common. The mainstay of treatment is medical, based on antibiotics; additionally, surgical management is reserved for sclerotic stage, when there is no inflammatory phenomenon. **Conclusion:** scleroma is a rare pathology, with a chronic evolution, with involvement mainly in the nasal cavity, which requires a high diagnostic suspicion for its timely management.

Introducción

Klebsiella rhinoscleromatis (KR) es una enterobacteria, diplobacilo gramnegativo, asociada con la formación de granulomatosis crónica específica del tracto respiratorio, que se denomina escleroma (1, 2). Esta patología se considera endémica en Egipto, África central, América central y América del sur; sin embargo, se desconoce su epidemiología en Colombia. Como factores de riesgo se han identificado: vivir en zonas rurales, condiciones de hacinamiento, mala higiene, inmunosupresión y deficiencias nutricionales como deficiencia de hierro (1). El objetivo de este artículo es presentar el caso clínico de una paciente con escleroma laringotraqueal, sin compromiso nasofaríngeo, quien debutó con obstrucción de la vía aérea, y esta presentación es poco común según los reportes de la literatura.

Caso clínico

Mujer de 27 años, reside en zona rural, sin antecedentes de importancia, consulta por el servicio de urgencias por un cuadro de tres meses de evolución de tos persistente, expectoración purulenta, disnea de medianos esfuerzos y estridor. En el examen físico presentó estridor en reposo sin otros signos de dificultad respiratoria y saturación de oxígeno adecuada. Trae una tomografía computarizada de cuello contrastada en la que se evidencia una estenosis traqueal concéntrica de aproximadamente el 80 % de la luz, a 10 mm del cartílago cricoides y 70 mm de la carina con una extensión de 20 mm (Figura 1).

Se realizan pruebas complementarias de autoinmunidad, anticuerpos antinucleares (ANAS), anticuerpos anticitoplasma de neutrófilos (ANCA) y factor reumatoide negativos. En estudio endoscópico flexible sin compromiso sinonasal, cuerdas vocales hipotróficas y móviles, estenosis laringotraqueal cicatricial desde cricoides hasta 2 cm por debajo de las cuerdas vocales, con una disminución del 70 % de la luz traqueal. Se realiza una traqueostomía y una reconstrucción

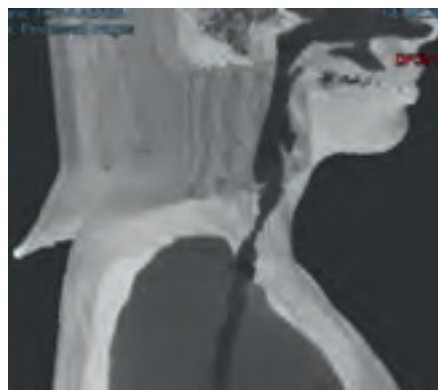


Figura 1. Tomografía de vía aérea simple donde se aprecia compromiso estenótico prequirúrgico. Fuente: imagen tomada de la paciente.

laringotraqueal con anastomosis termino-terminal ocho días después del ingreso. Al tercer día posoperatorio presentó abundantes secreciones mucopurulentas por traqueostomía con un aumento de reactantes de fase aguda, prueba molecular negativa de reacción en cadena de la polimerasa para tuberculosis en aspirado traqueal y cultivo de secreciones traqueales positivos, aislando *Streptococcus mitis* resistente a cefotaxima y *Klebsiella pneumoniae* ssp *rhinoscleromatis* multisensible. Ante el diagnóstico de rinoscleroma, se instaura un manejo con ciprofloxacino de 400 mg intravenoso (IV) cada 12 horas por seis meses; 3 meses después del inicio del manejo se realizó una nasofibrolaringoscopia que evidenció una reacción inflamatoria grave, cuerdas vocales fijas en abducción y estenosis glótica del 90 %, por lo cual cinco días después es llevada a broncoscopia rígida, resección y dilatación laringotraqueal con láser de argón. Se realiza nasofibrolaringoscopia de control seis meses después, en la que se encuentran cuerdas vocales fijas en abducción, con estenosis subglótica concéntrica del 80 %, ya sin inflamación (Figura 2). Actualmente continúa con uso de traqueostomía, sin episodios de broncoaspiración y sin aparición de nuevas lesiones en la vía aérea superior.

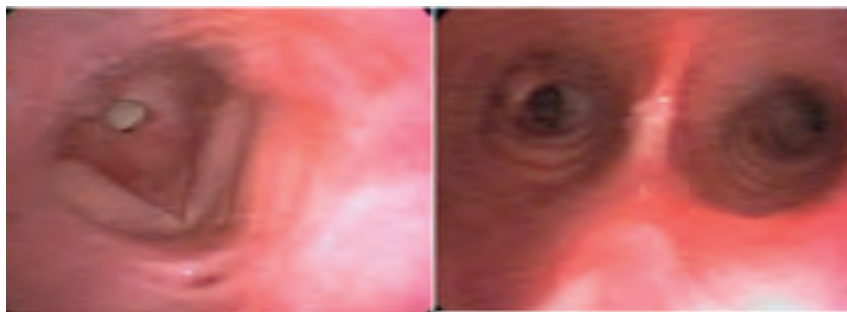


Figura 2. Nasofibrolaringoscopia 15 meses después de la primera intervención. A. Cuerdas vocales fijas en abducción, estenosis subglótica del 80 %, cánula de traqueostomía in situ. B. Tráquea distal, carina y bronquios principales sin lesiones. Fuente: imágenes tomadas de la paciente.

Discusión

El escleroma puede afectar todo el tracto respiratorio, y la afectación laríngea primaria es extremadamente rara, ya que por lo general la enfermedad comienza primero en la cavidad nasal con posterior extensión a nasofaringe, laringe, tráquea y bronquios (3).

Aún se desconocen múltiples aspectos sobre esta patología, y la mayoría de los estudios retrospectivos descriptivos son en poblaciones endémicas o reportes de caso (4-6). La mayoría de los casos se diagnostican en la tercera y cuarta década de la vida (3), con un rango amplio de presentación que puede ir de los 13 a los 70 años, con predominio en la población femenina.

Esta patología se presenta en tres etapas clínico-patológicas. La etapa atrófica, también denominada *catarral*, caracterizada por rinorrea purulenta asociada con atrofia de la mucosa nasal, está presente en el momento del diagnóstico aproximadamente en el 20 % de los pacientes. En esta etapa se encuentran con mayor frecuencia cultivos positivos de hisopado nasal. La etapa granulomatosa está constituida principalmente por nódulos y masas que pueden generar síntomas obstructivos en el tracto respiratorio; en la etapa de diagnóstico, en la mayoría de los pacientes se encuentran los hallazgos histológicos más característicos por la presencia de células de Mikulicz (macrófagos espumosos atípicos con KR fagocitada que persiste en vacuolas agrandadas) (4, 6); y en la etapa esclerótica hay las lesiones que son reemplazadas por cicatrices, deformidades y estenosis (3). []

Si bien aún no hay certeza sobre su patogenia, se considera que se transmite por medio de gotas y fómites (7), tiene predilección por el epitelio de transición presente en el vestíbulo nasal, faringe y subglotis, y el lugar más común es la nariz hasta en un 80 %-100 % de los casos, mientras que la patología laringotraqueal asociada está en un 15 %-40 % (3) y la laringotraqueal aislada es infrecuente. Existen pacientes que debutan con síntomas respiratorios y escasa sintomatología nasosinusal; esto se explica por la presencia de la etapa atrófica temprana a nivel nasal y una etapa granulomatosa o esclerótica en la laringe (4). KR cuenta con una cápsula cubierta de fimbrias y pleomorfismo que le permite crecer

vigorosamente intra- y extracelularmente (2). No todas las infecciones resultan en el desarrollo de la patología, por lo que se postula una predilección inmunológica (6).

El principal diagnóstico diferencial está dado por otras enfermedades granulomatosas de tipo autoinmune o infeccioso como tuberculosis o lepra, las cuales no presentan compromiso linfático, granulomatosis con poliangeítis y sarcoidosis, incluso se debe considerar neoplasias como carcinoma escamocelular o carcinoma de células claras (1, 5). El pilar del manejo ha sido el tratamiento médico con antibióticos; sin embargo, no existe un protocolo universal claro. Se han propuesto esquemas de trimetoprima/sulfametoxazol, rifampicina, quinolonas, cefalosporinas y doxiciclina sola o en combinación, con una duración mínima de tres meses. Se requirieron cultivos negativos para confirmar la resolución del cuadro; de lo contrario, se propone prolongar el tratamiento hasta negativizar cultivos debido a la alta tasa de recurrencia, que alcanza el 41 % al 76 % (5).

El manejo quirúrgico se reserva solo en la etapa esclerótica (inactiva) de la enfermedad, momento en el cual hay ausencia de los fenómenos inflamatorios, lo que mantiene como principio la anastomosis entre tejido sano y evita la tensión anastomótica. Por lo anterior, cuando se evidencia un compromiso a nivel subglótico y traqueal, se propone según el grado y la caracterización de la estenosis, la dilatación endoscópica, el manejo endoscópico con láser y, en casos complejos, la reconstrucción laringotraqueal con abordaje abierto cuya tasa de éxito global es del 87 %, y los pacientes con estenosis de menor grado presentan un mejor pronóstico (6, 8).

Conclusiones

Para concluir, se considera que el escleroma o rinoscleroma engloba una fisiopatología y distribución global poco clara y presenta una evolución crónica en pacientes que suelen tener difícil acceso al sistema de salud, lo que dificulta el diagnóstico. Se requiere una alta sospecha para su diagnóstico oportuno y un manejo multidisciplinario debido a la complejidad de los sitios que puede comprometer esta enfermedad.

Financiación

Los autores declaran que este informe no recibió apoyo financiero.

Conflictos de interés

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Declaración de autoría

Martínez-Rosado LL: atención de la paciente, análisis de datos, Pérez-Villegas DP y Isaza-Marín AY: atención de la paciente, supervisión. Hurtado-González M y Mendoza-Gallego A: diseño del proyecto y escritura del manuscrito. Todos los autores leyeron y aprobaron el manuscrito final.

Consideraciones éticas

El presente artículo se acoge a la declaración de Helsinki, adoptada por la Decimotava Asamblea Médica Mundial, Finlandia (1964), y la resolución 8430 del Ministerio de Salud de Colombia. Se tiene el consentimiento de la paciente para la publicación del caso.

REFERENCIAS

1. Iyengar P, Laughlin S, Keshavjee S, Chamberlain DW. Rhinoscleroma of the larynx. *Histopathology*. 2005;47(2):224-5. doi: 10.1111/j.1365-2559.2005.02089.x
2. Herrag M, Lahmiti S, Yazidi AA. Tracheobronchial rhinoscleroma. *J Bronchology Interv Pulmonol*. 2009;16(4):283-5. doi: 10.1097/LBR.0b013e3181be3074
3. Molumi CP, Dubey SP. Airway scleromas and their extensions. *ANZ J Surg*. 2016;86(9):670-4. doi: 10.1111/ans.13183
4. De Champs C, Vellin JF, Diancourt L, Brisse S, Kemeny JL, Gilain L, et al. Laryngeal scleroma associated with *Klebsiella pneumoniae* subsp. *ozaenae*. *J Clin Microbiol*. 2005;43(11):5811-3. doi: 10.1128/JCM.43.11.5811-5813.2005
5. Gaafar AH, Nour YA. Rhinoscleroma: an updated experience through the last 10 years. *Acta Otolaryngol*. 2011;131(4):440-6. doi: 10.3109/00016489.2010.539264
6. Mariz BALA, Sánchez-Romero C, Romañach MJ, de Almeida OP, Carlos R. Respiratory scleroma: A clinicopathologic study of 51 cases from Guatemala. *Oral Dis*. 2020;26(3):670-6. doi: 10.1111/odi.13264
7. Kalyoussef E, Harirchian S, Baredes S. Rhinoscleroma of the Larynx. *The Laryngoscope*. 2011;121:S173-S173. doi: 10.1002/LARY.22055
8. Soliman Z, Mobashir M, Basha WM, Askar S, Elnashar I, Said AE. Surgical management of scleromatous laryngotracheal stenosis. *Auris Nasus Larynx*. 2013;40(4):388-93. doi: 10.1016/j.anl.2012.11.014