



## Cas Clinique

# Mutilation Centrofaciale : Penser à une Leishmaniose Cutanéomuqueuse chez le Patient Infecté par le VIH

*Centro-facial mutilation: Consider mucocutaneous leishmaniasis in an HIV-infected patient*

Bonkougou M<sup>1</sup>, Traoré F<sup>2</sup>, Tapsoba GP,<sup>3</sup> Sidnoma Ouedraogo M<sup>3</sup>, Nomtongo Ouédraogo A<sup>3</sup>, Kafando Y<sup>4</sup>, Zeba S<sup>5</sup>, Korsaga/Somé N<sup>5</sup>, Barro/Traoré F<sup>6</sup> Niamba AP<sup>3</sup>, Traoré A<sup>3</sup>

### ABSTRACT

Centro-facial mutilations are a serious issue in terms of diagnosis, therapy and prognostic. HIV / leishmaniasis co-infection is an etiology to consider in our context of endemicity of mixt leishmaniasis and HIV epidemic. We report a case of leishmaniasis with *major leishmania* and a medio-facial mutilation in an HIV-infected patient aged 43, living in Burkina. An ocular involvement is associated with a type of blindness. This observation shows atypia of this co-infection, which could be a source of erroneous diagnostic. Functional and esthetic after effects may result from this condition. Care and management are difficult because of this comorbidity.

### RÉSUMÉ

Les mutilations centro faciales constituent un véritable problème tant du point de vue diagnostique, thérapeutique que pronostique. La co-infection VIH/ leishmaniose reste une des étiologies à prendre en compte dans notre contexte d'endémie de leishmaniose et d'épidémie mixte à VIH. Nous rapportons un cas de leishmaniose à *leishmanie major* avec mutilation medio faciale chez un patient infecté par le VIH âgé de 43 ans vivant au Burkina. Une atteinte oculaire à type de cécité était associée. Cette observation montre l'atypie de cette coïnfection pouvant être source d'errance diagnostique. Elle est responsable de séquelles fonctionnelles et esthétiques. Cette comorbidité rend aussi compte de la difficulté de sa prise en charge.

- (1) Centre Hospitalier Universitaire Bogodogo, Burkina Faso
- (2) Centre Hospitalier Universitaire Ouahigouya, Burkina Faso
- (3) Centre Hospitalier Universitaire Yalgadogo, Service de Dermatologie, Burkina Faso
- (4) Centre Hospitalier de Dédougou, Burkina Faso
- (5) Hôpital de District de Boulmiougou, Ouagadougou, Burkina Faso
- (6) Centre Hospitalier Universitaire de Tingandogo, Ouagadougou, Burkina Faso

**Auteur correspondant :** Dr Marcellin Bonkougou

email :

[bonkougou\\_marcelin@yahoo.fr](mailto:bonkougou_marcelin@yahoo.fr)

**Mots-clés :** mutilation centrofaciale, VIH, leishmaniose

**Keywords:** Centro-facial mutilation, HIV, leishmaniasis

## INTRODUCTION

Les leishmanioses sont des maladies infectieuses dues au parasitisme des cellules du système des phagocytes mononucléés par des protozoaires flagellés appartenant au genre *Leishmania*. Elles sont transmises par des insectes diptères appartenant au genre *Phlebotomus* dans l'Ancien Monde et *Lutzomyia* dans le Nouveau Monde.

On décrit des formes cutanées, cutanéomuqueuses et viscérales dont la distribution géographique est bien connue. Le Burkina Faso est un foyer à *Leishmania major*, responsable d'atteintes cutanées pures [1]. L'infection par le virus de l'immunodéficience humaine (VIH) peut modifier la présentation clinique de nombreuses affections dont la leishmaniose [2, 3]. Ainsi,

chez l'immunodéprimé au VIH, des formes cutanéomuqueuses ont été décrites en lien avec des espèces habituellement responsables de formes cutanées pures [4,5,6,7]. Chez les malades infectés par le VIH, Guiguemdé et al. [4], Barro-Traoré et al. [5], Niamba et al. [6,7] au Burkina Faso, et Dieng et al. [8] au Sénégal ont décrit des cas atypiques de leishmaniose cutanée disséminée à *L. major*, comparables à la leishmaniose cutanée diffuse (LCD) habituellement due à d'autres espèces de leishmanies. Cette comorbidité contribuerait donc à l'apparition des formes cliniques atypiques, avec viscéralisation des espèces dermatropes et inversement, dissémination cutanée des espèces à tropisme viscéral [9 ;10]. Des manifestations exceptionnelles polymorphes ont été décrites associées à une leishmaniose cutanée tel que l'érythème noueux, une vascularite ou, une atteinte

oculaire [3]. Elle est complexe par ses enjeux thérapeutiques qui dépendent de l'immunité de l'hôte ainsi que la disponibilité, l'efficacité et la tolérance des médicaments anti-leishmanies [3,11] Nous rapportons un cas de leishmaniose à *Leishmania major* avec mutilation centro faciale chez un patient infecté par le VIH. Une atteinte oculaire à type de cécité était associée.

### PATIENT ET OBSERVATION

Un comptable de 43 ans a consulté en 2003 au service de dermatologie du CHU Yalgado Ouédraogo pour des lésions papuleuses et nodulaires généralisées. L'éruption avait débuté un an et demi auparavant par des papules prurigineuses des jambes qui s'étaient disséminées progressivement sur tout le corps avec une infiltration des oreilles et des lèvres et une ulcération en l'emporte-pièce du tiers inférieur de la jambe gauche. Il était connu séropositif au VIH1 depuis trois ans et était sous traitement antiretroviral Stavudine/Lamuvudine/Nevirapine associé à la prophylaxie au cotrimoxazole. Le diagnostic de leishmaniose cutanée diffuse a été retenu sur la base de l'histologie. Il avait reçu comme traitement : 20 cures (14 jours par cure) antimoine de méglumine, deux cures d'amphotéricine B (10 injections tous les 2 jours par cure et deux cures de pentamidine (3jours par cure) en discontinuée pendant 7 ans jusqu'à la disparition complète des lésions. L'évolution sous traitement était marquée par des remissions et des poussées à l'arrêt du traitement. Les remissions se prolongeaient en moyenne de 4 semaines. Les poussées étaient fréquentes et plus graves quand le taux de CD4 était en dessous de 200 cellules par microlitre malgré une charge virale pour le VIH1 indétectable

Une année après la dernière cure, il consultait de nouveau pour une voie nasonnée et des lésions mutilantes du visage. L'état général était altéré. Il présentait à l'examen physique : une hypertrophie des cornées nasales, une ulcération de la base du nez et un œdème de la lèvre inférieure associé à des papules et nodules infiltrés disséminés sur le reste du tégument (figure 1A et 1B).



Figure 1A : Papules et nodules infiltrées



Figure 1B : ulcération et œdème de la lèvre

Il n'y avait pas de trouble de la sensibilité. L'examen des autres appareils et système était normal. Le taux de CD4 était à 215 cellules par microlitre avec une charge virale indétectable. Devant ce tableau, nous avons pensé à un carcinome, une rechute de la leishmaniose, une lèpre lépromateuse. L'examen histologique d'une biopsie de la fosse nasale montrait un granulome avec des cellules géantes, des cellules épithélioïdes et de nombreux macrophages contenant de multiples corps de Leishmanies. La rechute de la leishmaniose avec mutilation centro faciale a été retenu. Le patient a été de nouveau mis sous antimoine de méglumine.



Figure 2A : Début d'épidémisation M 3



Figure 2B : Début d'épidémisation M5

Malgré ce traitement (figure 2A, 2B), la cicatrisation des lésions s'est faite au bout d'un an au prix de

remaniements fibreux importants au niveau des muqueuses, avec effondrement de l'os du nez, obstruction totale d'une narine, rétrécissement important du deuxième orifice narinaire et de la bouche (figure 3A, 3B). Il était également noté un remaniement inflammatoire important au niveau des muqueuses oculaires avec un ectropion bilatéral (figure 3A, 3B). au début puis, une cataracte et une cécité. Une fibrose laryngée était également notée.



Figure 3A : Effondrement de l'os du nez, et rétrécissement buccal M12



Figure 3B : Ectropion, rétrécissement de l'orifice narinaire

La chirurgie réparatrice envisagée par les ORL et le chirurgien cervico-facial n'a pu être faite du fait de l'impossibilité d'intuber le patient pour une anesthésie générale. Finalement le patient est décédé 16 ans après sa première consultation dans un tableau de dénutrition et de défaillance multi viscérale.

## DISCUSSION

Cette observation de co-infection leishmaniose VIH avec mutilation centro faciale est originale par sa topographie. Le VIH et les leishmanies se développent aux dépens des macrophages et des cellules dendritiques. La coïnfection potentialise leurs effets pathogènes. Les réponses immunitaires antiparasites intracellulaires sont médiées par les cytokines des lymphocytes T de type

Th1 (IL-2, IL-12, IL-15, IL-18, Interféron Gamma). L'altération des lymphocytes T CD4<sup>+</sup> et les dysfonctionnements immunologiques chez les patients infectés par le VIH favorisent la dissémination des Leishmanies. Chez les patients co-infectés présentant une importante immunodépression, on observe une diminution des taux d'interféron Gamma et une altération des réponses immunitaires de type 1 au profit d'un profil de cytokines Th2-like (IL-4, IL-5, IL-10), inhibant l'activation macrophagique et permettant la réplication parasitaire intra-macrophagique [11]. Les manifestations cutanées de la leishmaniose sont déterminées par la qualité de la réponse immunitaire de l'hôte. La discordance immuno virologique avec des lymphocytes T4 bas malgré une charge virale indétectable expliquerait les rechutes malgré les différents traitements.

Depuis l'avènement de l'infection par le VIH plusieurs auteurs ont décrit des formes cutanées diffuses très difficile à guérir [4,5,6,7,8]. Elle évolue par poussées successives entrecoupées de rémissions malgré le traitement. C'est le cas de notre patient qui secondairement avec l'atteinte muqueuse responsable d'une destruction progressive des lèvres, de la cloison nasale du pharynx puis une mutilation évoluant vers des cicatrices rétractiles et une fibrose. L'ulcération comportait un fond granulomateux à bordures surélevées. La formation du granulome inflammatoire dans les macrophages peut s'agglomérer en amas nodulaires, englobant les vaisseaux du derme et des viscères et pouvant être cause d'ischémie et de troubles trophiques délabrants. Les conséquences qui en résultaient étaient fonctionnelles mais aussi une stigmatisation et une altération importante de la qualité de vie du patient. Notre observation suggère un phénomène de « viscéralisation » de l'infection par une leishmanie dermatrope, *L. major*, sous l'influence de l'immunodépression par le VIH. L'hypothèse d'une co-infection par *L. major* dans la peau et par une autre espèce dans la muqueuse est peu probable. La co-infection leishmaniose et VIH contribuerait à l'apparition des formes cliniques atypiques, avec atteinte des muqueuses des espèces dermatropes

Le second intérêt de notre observation était l'illustration du diagnostic pouvant être source d'errance dans notre contexte. Le diagnostic différentiel peut se faire avec plusieurs autres affections. La syphilis tertiaire caractérisée par une atteinte des os propres du nez et des cloisons osseuses, L'évolution de la syphilis se fait vers un arrêt spontané laissant une mutilation effroyable [12]. Au cours de la lèpre, l'atteinte nasale est constante dans 70 % des cas et se manifeste sous forme de rhinite chronique et persistante associant des épistaxis à répétition, une perforation septale ou une destruction de la pyramide nasale [12]. Le noma est une gangrène infectieuse buccale, consécutive et, parfois, cause de dénutrition, entraînant des ulcérations destructrices bucco-faciales [12]. Le granulome malin centrofacial de Stewart, granulomateuse destructrice, débute par une épistaxis et des ulcérations endonales et entraîne sur quelques mois ou années une destruction mutilante de

toute la région centrofaciale avec souvent une issue fatale par des complications septiques et hémorragiques [12]. La sarcoïdose a une tendance moins envahissante, une consistance plus ferme et les lésions s'ulcèrent exceptionnellement. Le lupus érythémateux systémique peut également être envisagé, mais plutôt à un stade de début. L'histologie et l'évolution sous traitement chez notre patient n'étaient pas en faveur de ces étiologies.

Une des particularités aussi de notre cas est l'atteinte ophtalmologique qui est rare au cours des leishmanioses [3,13,14]. Toutes les formes de leishmanioses, peuvent entraîner des complications ophtalmologiques parfois graves. Les manifestations de leishmaniose incluent les ulcères des paupières, les blépharites, les conjonctivites, les cataractes, les kératites interstitielles, les uvéites antérieures, avec comme complications, glaucome secondaire et cécité [13,14,15.] Elles sont particulièrement sévères chez l'immunodéprimé Notre cas souligne le caractère potentiellement cécitant des atteintes oculaires à *Leishmania*. Un diagnostic précoce et un traitement adapté sont nécessaires pour éviter les complications graves mettant en jeu le pronostic fonctionnel de l'œil comme chez notre patient Cette comorbidité est complexe par ses enjeux thérapeutiques.

## CONCLUSION

Cette observation montre l'atypie des présentations cliniques de la leishmaniose chez le patient infecté par le VIH, cause de mutilation centro faciale. Elle est responsable de séquelles fonctionnelles et esthétiques graves. Le pronostic vital de ce patient est mis en jeu car la fibrose buccale ne permet qu'une alimentation semi-liquide et il existe un risque de fausse route devant la fibrose laryngée le retentissement psychologique et fonctionnel de cette comorbidité associée à l'atteinte oculaire ne devraient pas être sous-estimé Elle rend aussi compte également de la difficulté de sa prise en charge. Cette pathologie est une étiologie à prendre en compte devant toute mutilation centro faciale dans notre contexte de pays d'endémie à leishmaniose et d'épidémie mixte à VIH.

## Déclaration de liens d'intérêts :

Les auteurs déclarent de ne pas avoir de liens d'intérêts

## RÉFÉRENCES

- Harrat Z, Pratlong F, Benikhlef R, Lami P, Belkaid M, Dedet JP. *Leishmania major* MON-74 as a causative agent of cutaneous leishmaniasis in Burkina Faso. *Trans R Soc Trop Med Hyg* 1998 ;92 :355.
- Barro-Traoré F, Preney L, Traoré A : Premier cas de leishmaniose cutanée à *Leishmania major* avec extension viscérale à la moelle chez un patient infecté par le VIH au Burkina Faso. *Ann Dermatol Venerol* 2007 ; 134 : 42-3
- M. Mokni. Leishmanioses cutanées *Ann Dermatol Venerol* 2019, 146, 232—246.
- Guiguemdé RT, Sawadogo OS, Bories C, Traoré KL, Nezien D, Nikiema L, et al. *Leishmania major* and HIV co-infection in Burkina Faso. *Trans R Soc Trop Med Hyg* 2003; 97:168- 9.
- Barro-Traoré F, Yé-Ouattara D, Traoré A, et al. Leishmaniose cutanée pseudo-lépromateuse : analyse de six cas à Ouagadougou (Burkina Faso). *Nouv Dermatol* 2002 ;21 :156-61.
- Niamba P, Traoré A, Gombri-Lompo O, Labrèze C, Traoré-Barro F, Bonkougou M, et al. Leishmaniose cutanée chez les malades infectés par le VIH. *Ann Dermatol Venerol* 2006 ;133 :537-42.
- Niamba P, Gombri-Lompo O, Traoré A, Barro-Traoré F, Soudré RT. Diffuse cutaneous leishmaniasis in an HIV-positive patient in Western Africa. *Australas J Dermatol* 2007 ;48 :32-
- Dieng MT, N'Diaye B, Develoux M. Leishmaniose cutanée diffuse pseudo-lépromateuse. À propos d'une observation. *Nouv Dermatol* 2001 ;2 :74-6.
- Diro E, van Griensven J, Mohammed R, Colebunders R, Asefa M, Hailu A, et al. Atypical manifestations of visceral leishmaniasis in patients with HIV in north Ethiopia: a gap in guidelines for the management of opportunistic infections in resource poor settings. *Lancet Infect Dis* 2015;15:122-9.
- Santos-Oliveira JR, Da-Cruz AM, Pires LH, Cupolillo E, Kuhls K, Giacoia-Gripp CB, et al. Atypical lesions as a sign of cutaneous dissemination of visceral leishmaniasis in a human immunodeficiency virus—positive patient simultaneously infected by two viscerotropic *Leishmania* species. *Am J Trop Med Hyg* 2011; 85:55-9.
- Ezra N, Ochoa MT, Craft N. Human Immunodeficiency Virus and Leishmaniasis. *J Glob Infect Dis.* 2010 ;2(3) :248-257.
- P. Niamba, A. Traoré, F. Traoré-Barro, I. Ilboudo, M. Bonkougou, G. Diatto, P.K. Ouoga, O. Gombri-Lompo. Le Lupus tuberculeux : une cause de mutilation centrofaciale à ne pas méconnaître. *Bull Soc Path Exot*, 2006; 99 (3) : 1-3.
- Satici A, Gurler B, Aslan G, Ozturk I. Ocular involvement in cutaneous leishmaniasis four cases with blepharoconjunctivitis. *Eur J Epidemiol* 2004; 19:263-6.
- A. Perrin-Terrin, S. Auriol, L. Mahieu, A. Debard, A. Eden, M. Cassagne, V. Pagot- Mathis, F. Malecaze, V. Soler. Recurrent bilateral anterior uveitis due to *Leishmania infantum* in a patient with immune deficiency related to HIV infection: a case report and literature review. *J Fr Ophthalmol.*, vol. 37, no. 7, pp. 514-9, 2014
- Modarreszadeh M, Manshai K, Shaddel M, Oormazdi H. Ocular leishmaniasis. *Iran J Ophthalmol* 2006; 19:1-5.
- Naranjo C, Fondevila D, Leiva M, Roura X, Pena T. Characterization of lacrimal gland lesions and possible pathogenic mechanisms of keratoconjunctivitis sicca in dogs with leishmaniasis. *Vet Parasitol* 2005 ; 133:37-47.