

CAS CLINIQUE/CLINICAL CASE

Lésion verruqueuse nasale :
un cas marocain de leishmaniose cutanée atypique

Nasal wart lesion: a Moroccan case of atypical cutaneous leishmaniasis

Khalil ZIMI*, Imane ZOUAOUI, Hanaa NEJJARI, Sarra AOUI

RÉSUMÉ Introduction/Justification. La leishmaniose cutanée (LC) est une parasitose endémique au Maroc. Elle est particulièrement préoccupante en raison de la diversité des espèces responsables et de leurs manifestations cliniques variées. *Leishmania infantum*, souvent associé à la leishmaniose viscérale, peut également provoquer des formes cutanées localisées dans des contextes épidémiologiques particuliers. Nous rapportons un cas atypique de LC nasale causée par *L. infantum*.

Observation. Une patiente de 60 ans, résidant à Salé et sans antécédent médical notable, a présenté une lésion inflammatoire verruqueuse sur l'aile gauche du nez, apparue six mois après un séjour dans la ville de Taza. L'examen clinique et l'analyse parasitologique ont permis de poser le diagnostic de leishmaniose cutanée. L'identification de l'espèce (*L. infantum*) a été réalisée par PCR-RFLP. Une cicatrisation partielle de la lésion a été obtenue après traitement par antimoniate de méglumine.

Discussion/Conclusion. Ce cas rapporte une présentation atypique sous forme de lésion nasale verruqueuse rare de LC à *L. infantum*, espèce classiquement associée à la forme viscérale mais de plus en plus rapportée dans des manifestations cutanées localisées, témoignant ainsi de la diversité clinique de la LC. Le retard diagnostique n'a permis qu'une cicatrisation partielle, soulignant l'importance d'une reconnaissance précoce des formes inhabituelles. Ce cas souligne également la nécessité de renforcer la surveillance épidémiologique et de sensibiliser davantage les professionnels de santé ainsi que les populations exposées, dans le cadre d'une stratégie intégrée de lutte contre la LC.

Mots clés : Leishmaniose cutanée nasale, *Leishmania infantum*, PCR-RFLP, Maroc, Afrique du Nord

ABSTRACT Introduction/Justification. Cutaneous leishmaniasis (CL) is an endemic parasitic disease in Morocco. It is of particular concern due to the diversity of species involved and their varied clinical manifestations. *Leishmania infantum*, which is often associated with visceral leishmaniasis, can also cause localized cutaneous forms of the disease in certain epidemiological contexts. We present a case of atypical nasal CL caused by *L. infantum*.

Observation. A 60-year-old female patient residing in Salé with no significant medical history presented with a verrucous inflammatory lesion on the left side of her nose. The lesion appeared six months after she stayed in the city of Taza. Clinical examination and parasitological analysis led to a diagnosis of cutaneous leishmaniasis. PCR-RFLP identified the species as *L. infantum*. The lesion partially healed after treatment with meglumine antimoniate.

Discussion/Conclusion. This case reports an atypical presentation of CL in the form of a rare verrucous nasal lesion caused by *L. infantum*. This species is classically associated with visceral leishmaniasis, but it is increasingly being reported in localized cutaneous manifestations. This case demonstrates the clinical diversity of CL. The delay in diagnosis resulted in only partial healing, which highlights the importance of early recognition of unusual forms. This case also underscores the need to strengthen epidemiological surveillance and raise awareness among healthcare professionals and exposed populations as part of an integrated strategy to combat CL.

Key Words: Nasal Cutaneous Leishmaniasis, *Leishmania infantum*, PCR-RFLP, Morocco, North Africa

Introduction

La leishmaniose cutanée (LC) constitue un problème majeur de santé publique au Maroc. Elle est due à trois espèces du genre *Leishmania*: *L. major*, *L. tropica* et *L. infantum* [3,5,7,9,10,12,13]. Chacune de ces espèces présente un contexte épidémiologique distinct ainsi qu'un polymorphisme clinique spécifique [11]. Dans cet article, nous rapportons un cas sporadique de LC nasale causée par *L. infantum*, caractérisé par un aspect morphologique inhabituel. L'objectif est de mettre en lumière les particularités épidémiologiques et cliniques de cette forme atypique de leishmaniose.

Description du cas

Il s'agit d'une patiente de 60 ans, résidant dans la ville de Salé au nord-ouest du Maroc. Elle a été adressée au laboratoire central de parasitologie-mycologie pour suspicion d'une leishmaniose cutanée. À l'interrogatoire la patiente a rapporté qu'elle avait ressenti une piqûre d'insecte pendant son séjour à Taza lors d'un voyage. Une petite lésion inflammatoire au niveau nasal est apparue six mois après son séjour (Fig. 1). Elle s'est étendue neuf mois après son apparition sur l'ensemble de l'aile gauche du nez malgré un traitement local par des antibiotiques. L'examen clinique a objectivé une lésion cutanée de type inflammatoire, saillante et d'aspect verruqueux au niveau de l'aile gauche et du lobe du nez (Fig. 2).

Le prélèvement a été réalisé par raclage des bordures des ulcérations. Les échantillons obtenus ont été colorés au Giemsa et examinés au grossissement x 100.

L'observation au microscope optique a montré des formes amastigotes de *Leishmania* sp. au sein et à l'extérieur des macrophages (Fig. 3), confirmant ainsi le diagnostic de LC. L'identification spécifique a été réalisée au Laboratoire national de référence des leishmanioses de l'Institut national d'hygiène, en utilisant la technique de PCR-RFLP. L'analyse du profil électrophorétique a révélé une correspondance avec celui de *L. infantum*.

En parallèle, un examen anatomo-pathologique a été réalisé sur deux fragments biopsiques. Il a montré que le cytoplasme des macrophages était le siège de corps granuleux et basophiles en faveur de corps de Leishman.

Le diagnostic de LC à *L. infantum* a été retenu. Un traitement à base d'antimoniote de méglumine (Glucantime®) a été initié, selon le protocole décrit par le ministère de la Santé: 20 mg de Sb5+/kg

Introduction

Cutaneous leishmaniasis (CL) is a significant public health concern in Morocco. It is caused by three species of the genus *Leishmania*: *L. major*, *L. tropica*, and *L. infantum* [3,5,7,9,10,12,13]. Each species has a distinct epidemiological context and specific clinical manifestations [11]. This article reports a sporadic case of nasal CL caused by *L. infantum* that was characterized by an unusual morphological appearance. Our goal is to highlight the epidemiological and clinical features of this atypical form of leishmaniasis.

Case description

The patient is a 60-year-old woman who resides in Salé, a city in northwestern Morocco. She was referred to the central parasitology-mycology laboratory for suspected cutaneous leishmaniasis. During the interview, she reported feeling an insect bite while traveling in Taza. Six months after her trip, a small inflammatory lesion appeared on her nose (Fig. 1). Nine months after its appearance, despite local treatment with antibiotics, it had spread across the entire left side of her nose. Clinical examination revealed an inflammatory, protruding, wart-like skin lesion on the left side of her nose and nasal lobe (Fig. 2).

A sample was obtained by scraping the edges of the ulcerations. The samples were stained with Giemsa and examined at 100x magnification.

Observation under an optical microscope revealed amastigote forms of *Leishmania* sp. within and outside macrophages (Fig. 3), confirming the diagnosis of CL. The National Reference Laboratory for Leishmaniasis at the National Institute of Hygiene performed specific identification using the PCR-RFLP technique. Analysis of the electrophoretic profile revealed a match with *L. infantum*.

At the same time, a pathological examination was performed on two biopsy fragments. The examination showed that the macrophages' cytoplasm contained granular and basophilic bodies consistent with Leishman bodies.

The diagnosis of CL caused by *L. infantum* was confirmed. According to the protocol described by the Ministry of Health, treatment with meglumine antimoniate (Glucantime®) was initiated: 20 mg of Sb5+/kg was administered intramuscularly over three weeks, not exceeding two ampoules. The outcome was partial healing of the lesion.



Figure 1 : Lésion initiale inflammatoire survenue six mois après la piqûre

Figure 1: Initial inflammatory lesion occurring six months after the bite

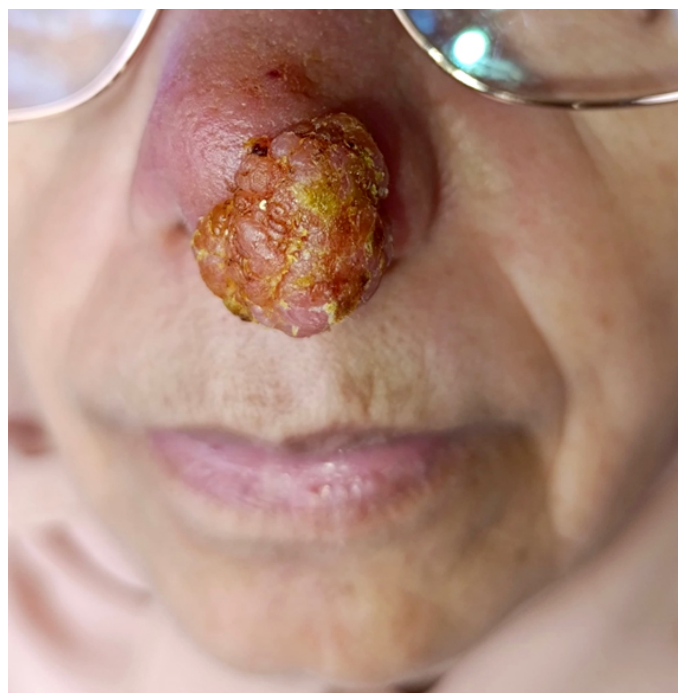


Figure 2 : Évolution de la lésion inflammatoire sur l'aile gauche et le lobe du nez après 1 an et 3 mois présentant un aspect verruqueux

Figure 2: Progression of the inflammatory lesion on the left wing and lobe of the nose after 1 year and 3 months, presenting a wart-like appearance

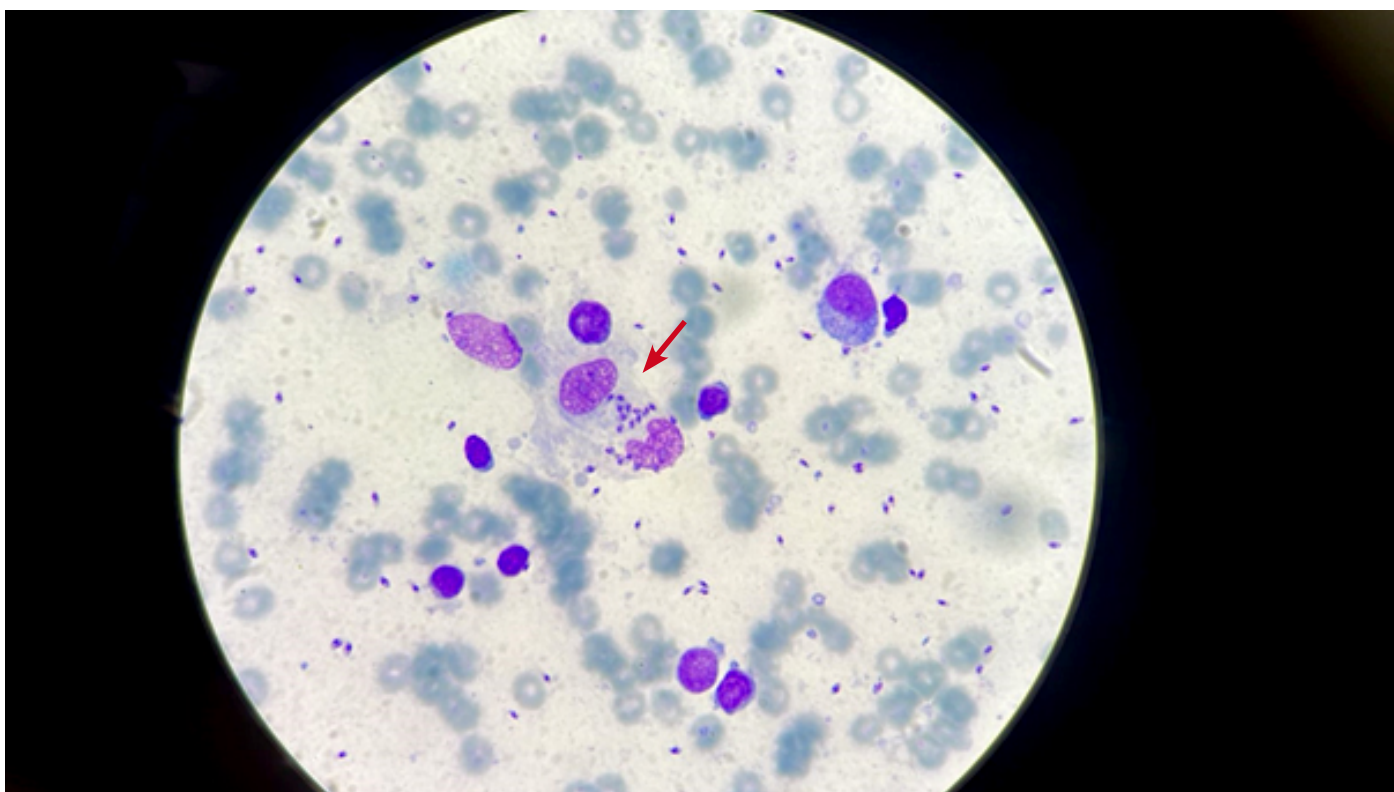


Figure 3 : Formes amastigotes de *Leishmania* sp à l'objectif 100. La flèche indique les formes amastigotes de leishmanies

Figure 3: Amastigote forms of *Leishmania* sp at 100x magnification. The arrow indicates the amastigote forms of *Leishmania*

ont été administrés par voie intramusculaire sans dépasser deux ampoules, pendant trois semaines. L'évolution a été marquée par une cicatrisation partielle de la lésion.

Discussion

La LC constitue un problème de santé publique au Maroc, en raison de sa large distribution géographique et de la diversité des espèces responsables, notamment *L. tropica*, *L. major* et *L. infantum* [5,9,10,13]. Dans notre cas, la patiente résidait dans une région de faible endémie mais avait voyagé dans la région de Taza, située au nord-est du Maroc. Cette région connaît une recrudescence des cas de LC à *L. tropica* [11]. Selon l'étude de Hakkour *et al.* [6], de nouvelles données épidémiologiques mettent en évidence la coexistence de foyers de leishmaniose viscérale (LV) et LC dans la région de Taza. Les zones rurales proches des massifs forestiers, abritant des chiens errants et des phlébotomes, notamment *Phlebotomus perniciosus* et *P. ariasi* proches des habitations, ont été identifiées comme des foyers actifs de transmission.

Classiquement, la LC se manifeste par une papule érythémateuse évoluant vers une ulcération centrale avec des bords surélevés. La forme typique est une lésion unique ou multiple, localisée sur les zones découvertes, évoluant lentement vers une cicatrisation spontanée [4]. Dans notre cas, la patiente a présenté une lésion atypique sur le nez, caractérisée par une évolution prolongée et un aspect verruqueux. Ce type de présentation, bien que rare, a été rapporté dans des études antérieures soulignant des formes inhabituelles de LC, incluant des manifestations érysipéloïdes, lupoïdes et angiolupoïdes [5,6,7,9,10,12,13]. Ces formes rares s'expliqueraient par des interactions complexes entre le parasite et la réponse immunitaire de l'hôte, laquelle est fortement médiée par l'immunité cellulaire. La réponse immunitaire peut être modulée par divers facteurs, notamment l'âge, l'état nutritionnel, l'utilisation de stéroïdes ou des comorbidités sous-jacentes [2].

Bien que *L. infantum* soit principalement associée à la LV dans plusieurs régions du Maroc, elle est de plus en plus impliquée dans des formes cutanées localisées, notamment dans certains foyers émergents, où les taux d'infection sont particulièrement élevés, confirmant son rôle dans ces manifestations cutanées [3]. Des études récentes, notamment celles menées dans la région de Taza, ont mis en évidence une recrudescence des cas

Discussion

CL is a public health problem in Morocco due to its wide geographical distribution and the diversity of species involved, particularly *L. tropica*, *L. major*, and *L. infantum* [5,9,10,13]. In this case, the patient lived in an area of low endemicity but traveled to the Taza region in north-eastern Morocco. This region has experienced a resurgence of CL cases caused by *L. tropica* [11]. According to Hakkour *et al.*'s study [6], new epidemiological data highlight the coexistence of visceral leishmaniasis (VL) and CL foci in the Taza region. Active transmission foci have been identified in rural areas close to forests, where stray dogs and sand flies, particularly *Phlebotomus perniciosus* and *P. ariasi*, are present near human dwellings.

CL typically manifests as an erythematous papule that progresses to central ulceration with raised edges. It usually presents as one or more lesions on exposed areas that slowly progress to spontaneous healing [4]. In this case, however, the patient presented with an atypical lesion on the nose that was characterized by a prolonged course and verrucous appearance. Although rare, this type of presentation has been reported in previous studies highlighting unusual forms of CL, including erysipeloid, lupoid, and angiolupoid manifestations [5,6,7,9,10,12,13]. These rare forms can be explained by the complex interactions between the parasite and the host's immune response, which is strongly mediated by cellular immunity. This response can be influenced by various factors, such as age, nutritional status, steroid use, and underlying comorbidities [2].

Leishmania infantum is primarily associated with VL in Morocco; however, it is increasingly implicated in localized cutaneous forms, particularly in emerging regions with high infection rates, confirming its role in these manifestations [3]. Recent studies, particularly those conducted in the Taza region, have highlighted an increase in CL cases caused by *L. infantum*, confirming its role in the disease's clinical diversity [6]. A series of 40 cases observed in the dermatology department at Hassan II University Hospital in Fez from January 2010 to December 2015 demonstrated various clinical presentations, including nine cases of

de LC à *L. infantum*, confirmant son rôle dans la diversité clinique de la maladie [6]. Ainsi une série de 40 cas suivie dans le service de dermatologie du CHU Hassan II de Fès entre janvier 2010 et décembre 2015 a montré une variété de formes cliniques, y compris 9 cas en formes verruqueuses et lupoides [1]. Ces études confirment non seulement la présence active de foyers mixtes (LC et LV) mais aussi l'implication croissante de *L. infantum* dans les tableaux cutanés atypiques. Dans les pays voisins comme la Tunisie et l'Algérie, les formes cliniques atypiques de la LC, notamment les lésions verruqueuses, sont bien décrites et relativement fréquentes. En Tunisie, des études menées dans le centre et le sud du pays ont mis en évidence une proportion significative de présentations verruqueuses, parfois dépassant 25 % des cas. De même en Algérie, plusieurs publications font état d'un polymorphisme clinique important, incluant des formes verruqueuses, lupoides ou nodulaires [4,5,6,7,8,9]. En revanche, au Maroc, ces formes restent rares et peu rapportées dans la littérature.

Le traitement initié à base d'antimoniote de méglumine a suivi les recommandations nationales, bien que le retard de diagnostic ait compromis une résolution complète des lésions [4]. Une cicatrisation partielle a été observée, soulignant l'importance de la détection précoce et d'un traitement rapide pour limiter les séquelles.

Conclusion

Ce cas illustre la complexité et le polymorphisme clinique de la leishmaniose cutanée, en particulier lorsqu'elle est causée par *L. infantum*, une espèce habituellement associée aux formes viscérales. La présentation atypique, caractérisée par une lésion verruqueuse, met en évidence l'importance d'une reconnaissance précoce des formes rares afin d'éviter les retards diagnostiques et thérapeutiques.

Consentement de la patiente

Le consentement écrit de la patiente a été obtenu.

Financement

Cette étude n'a bénéficié d'aucun financement.

verrucous and lupoid forms [1]. These studies confirm the active presence of mixed foci (CL and VL) and the growing involvement of *L. infantum* in atypical skin presentations.

In neighboring countries such as Tunisia and Algeria, atypical clinical forms of CL, particularly verrucous lesions, have been well documented and are relatively common. Studies conducted in central and southern Tunisia have revealed a substantial proportion of verrucous presentations, sometimes exceeding 25% of cases. Similarly, several publications from Algeria report significant clinical polymorphism, including verrucous, lupoid, and nodular forms [4,5,6,7,8,9]. In Morocco, however, these forms are rare and rarely reported in the literature.

Treatment with meglumine antimoniate was initiated in accordance with national recommendations; however, the delay in diagnosis compromised complete resolution of the lesions [4]. Partial healing was observed, underscoring the importance of early detection and prompt treatment to minimize sequelae.

Conclusion

This case illustrates the complexity and clinical polymorphism of cutaneous leishmaniasis, particularly when caused by *L. infantum*, a species typically linked to visceral forms. This unusual presentation, characterised by a wart-like lesion, highlights the importance of early recognising rare forms on, to avoid delays in diagnosis and treatment.

Patient's consent

The patient's written consent was obtained.

Funding

This study did not receive any funding.

Contributions des auteurs et autrices

Khalil ZIMI: conception de l'étude, prospection bibliographique, définition de la méthodologie, interprétation des résultats et rédaction du manuscrit.

Imane ZOUAOUI: supervision de l'étude, confirmation de l'exactitude et de l'intégrité des données, approbation et validation de la version finale

Hanaa NEJJARI: conception de l'étude, prospection bibliographique et rédaction du manuscrit

Sarra AOUI: approbation de la version finale

Authors' contributions

Khalil ZIMI: study design, literature review, definition of methodology, interpretation of results, and manuscript writing.

Imane ZOUAOUI: study supervision, confirmation of data accuracy and integrity, approval and validation of the final version

Hanaa NEJJARI: study design, literature review, and manuscript writing

Sarra AOUI: approval of the final version

Déclaration de liens d'intérêt

Aucun lien d'intérêt n'a été déclaré.

Conflict of interest

The authors declare no conflict of interest.

Auteurs, autrices / Authors

Khalil ZIMI* (1,2), Imane ZOUAOUI (1,2, dr.bio.zimane@gmail.com), Hanaa NEJJARI (1,2, nejjhan@gmail.com), Sarra AOUI (1,2, s.aoufi@um5s.ac.ma)

1. Laboratoire central de parasitologie-mycologie, Centre hospitalo-universitaire (CHU) Ibn Sina, Rabat, Maroc

2. Faculté de médecine et de pharmacie de Rabat, Impasse souissi, Rabat 10100, Maroc

Auteur correspondant: khalil.zimi@um5s.net.ma

Références / References

1. Agharbi F-Z, Mernissi F-Z. Leishmaniose cutanée : aspects cliniques et thérapeutiques à propos de 40 cas. *PAMJ Clinical Medicine*. 2020;2:71. doi: 10.11604/pamj-cm.2020.2.71.21324.
2. Ashford RW. The leishmaniasis as emerging and reemerging zoonoses. *Int J Parasitol*. 2000 Nov;30(12-13):1269-81. doi: 10.1016/S0020-7519(00)00136-3.
3. Ballart C, Guerrero I, Castells X, Barón S, Castillejo S, Alcover MM, Portús M, Gállego M. Importance of individual analysis of environmental and climatic factors affecting the density of *Leishmania* vectors living in the same geographical area: the example of *Phlebotomus ariasi* and *P. perniciosus* in northeast Spain. *Geospat Health*. 2014 May;8(2):389-403. doi: 10.4081/gh.2014.28.
4. Desjeux P. Leishmaniasis: current situation and new perspectives. *Comp Immunol Microbiol Infect Dis*. 2004 Sep;27(5):305-18. doi: 10.1016/j.cimid.2004.03.004.
5. El Idrissi Saik I, Benlabsir C, Fellah H, Lemrani M, Riyad M. Transmission patterns of *Leishmania tropica* around the Mediterranean basin: Could Morocco be impacted by a zoonotic spillover? *PLoS Negl Trop Dis*. 2022 Jan 13;16(1):e0010009. doi: 10.1371/journal.pntd.0010009.

6. Hakkour M, Hmamouch A, El Alem MM, Rhalem A, Amarir F, Touzani M, Sadak A, Fellah H, Sebti F. New epidemiological aspects of visceral and cutaneous leishmaniasis in Taza, Morocco. *Parasit Vectors*. 2016 Nov 29;9(1):612. doi: 10.1186/s13071-016-1910-x.
7. Jaouadi K, Bettaieb J, Bennour A, Salem S, Rjeibi MR, Chaabane S, Yazidi R, Khabouchi N, Gharbi A, Salah AB. First Report on Natural Infection of *Phlebotomus sergenti* with *Leishmania tropica* in a Classical Focus of *Leishmania major* in Tunisia. *Am J Trop Med Hyg*. 2017 Jul;97(1):291-294. doi: 10.4269/ajtmh.16-0849.
8. Masmoudi A, Ayadi N, Boudaya S, Meziou TJ, Mseddi M, Marrekchi S, Bouassida S, Turki H, Zahaf A. Polymorphisme clinique de la leishmaniose cutanée du centre et sud tunisien. *Bull Soc Pathol Exot*. 2007 Feb;100(1):36-40.
9. Mihoubi I, Picot S, Hafirassou N, de Monbrison F. Cutaneous leishmaniasis caused by *Leishmania tropica* in Algeria. *Trans R Soc Trop Med Hyg*. 2008 Nov;102(11):1157-9. doi: 10.1016/j.trstmh.2008.06.013.
10. Ministère de la Santé publique. Lutte contre les leishmanioses. Guide des activités. 1997 ; 107 p.
11. OMS. Control of the leishmaniasis. World Health Organization Technical Report Series. 2010;949:1-186.
12. Peters NC, Egen JG, Secundino N, Debrabant A, Kimblin N, Kamhawi S, Lawyer P, Fay MP, Germain RN, Sacks D. In vivo imaging reveals an essential role for neutrophils in leishmaniasis transmitted by sand flies. *Science*. 2008 Aug 15;321(5891):970-4. doi: 10.1126/science.1159194. Erratum in: *Science*. 2008 Dec 12;322(5908):1634.
13. Rhajaoui M, Fellah H, Pratlong F, Dedet JP, Lyagoubi M. Leishmaniasis due to *Leishmania tropica* MON-102 in a new Moroccan focus. *Trans R Soc Trop Med Hyg*. 2004 May;98(5):299-301. doi: 10.1016/S0035-9203(03)00071-3.