

Actinomicosis intestinal: diagnóstico inesperado en una escolar con diabetes mellitus tipo 1. Reporte de un caso

Intestinal actinomycosis: unexpected diagnosis in a schoolchild with type 1 diabetes mellitus. Case report

Hirad Felipe Pérez-Ávila,* Gabriela Mauleón-Carbajal,† Alfredo Raúl Rodolfo Morayta-Ramírez-Corona,§
María Elena Martínez-Bustamante,¶ María Fernanda Acosta-Martínez,||
Carolina Martínez-Mijares,** Diana Zaragoza-García††

* Médico Infectólogo Pediatra.

† Médico residente de cuarto año de Infectología Pediátrica, Centro Médico Nacional (CMN) 20 de Noviembre, ISSSTE, Ciudad de México.

‡ Jefe del Servicio de Infectología Pediátrica, CMN 20 de Noviembre, ISSSTE, CDMX.

§ Médica adscrita al Servicio de Infectología Pediátrica, CMN 20 de Noviembre, ISSSTE, CDMX.

¶ Jefa del Servicio de Endocrinología Pediátrica, CMN 20 de Noviembre, ISSSTE, CDMX.

** Residente de Anatomía Patológica, CMN 20 de Noviembre, ISSSTE, CDMX.

†† Médico Pediatra.

RESUMEN

La actinomicosis es una enfermedad infecciosa granulomatosa infrecuente de curso subagudo o crónico, causada por bacterias filamentosas oportunistas del género *Actinomyces*, de las cuales, *Actinomyces israelii*, un bacilo grampositivo anaerobio, no esporulado y no ácido-alcohol resistente, es el más frecuentemente aislado. Se caracteriza por generar tumoraciones con deformación del área que afecta, además de acompañarse de abscesos de donde drena un exudado purulento que contiene las formas infectantes llamadas «granos de azufre». El tratamiento combina la resección tumoral con antibioticoterapia, lográndose una evolución satisfactoria. Se presenta el caso clínico de una niña de ocho años con diabetes mellitus tipo 1 sin control metabólico, con dolor abdominal de larga evolución y tumor periumbilical derecho en aumento progresivo, sin signos de irritación peritoneal, con múltiples tratamientos y sin mejoría. Las imágenes diagnósticas reportaron una tumoración dependiente de íleon terminal. Se realizó la extirpación quirúrgica con resección intestinal en bloque. El estudio histopatológico reportó enteritis crónica y fibrosis con gránulos de bacterias del grupo *Actinomyces spp.*

Palabras clave: dolor abdominal, diabetes mellitus, tumor, *Actinomyces*, actinomicosis.

ABSTRACT

Actinomycosis is a rare infectious granulomatous disease of subacute or chronic course, caused by opportunistic filamentous bacteria of the genus Actinomyces, of which Actinomyces israelii, an anaerobic gram-positive, non-sporulating and non-acid-alcohol resistant bacillus, is the most frequently isolated. It is characterized by generating tumorous masses that deform the affected area and is accompanied by abscesses that drain a purulent exudate containing the infecting forms called «sulfur granules». The treatment combines tumor resection with antibiotic therapy, achieving a satisfactory evolution. We present the clinical case of an 8-year-old female with type 1 diabetes mellitus, with long-standing abdominal pain and a progressively increasing right periumbilical tumor. There are no signs of peritoneal irritation and multiple treatments have shown no improvement. Diagnostic images showed a mass dependent on the terminal ileum. Surgical excision was performed with bloc intestinal resection; the histopathological study reported chronic enteritis and fibrosis with granules of bacteria of the Actinomyces spp. group.

Keywords: abdominal pain, diabetes mellitus, tumor, *Actinomyces*, actinomycosis.

Citar como: Pérez-Ávila HF, Mauleón-Carbajal G, Morayta-Ramírez-Corona ARR, Martínez-Bustamante ME, Acosta-Martínez MF, Martínez-Mijares C et al. Actinomicosis intestinal: diagnóstico inesperado en una escolar con diabetes mellitus tipo 1. Reporte de un caso. Rev Latin Infect Pediatr. 2024; 37 (1): 39-43. <https://dx.doi.org/10.35366/115485>

Recibido: 23-11-2023. Aceptado: 14-12-2023.



INTRODUCCIÓN

La actinomycosis es una enfermedad infecciosa de curso subagudo o crónico, infrecuente. Es causada por bacterias del género *Actinomyces*, bacilos grampositivos filamentosos, no esporulados y no ácido-alcohol resistentes; treinta de sus especies son potencialmente patógenas; entre ellas, *Actinomyces israelii* es la más frecuentemente aislada. Estas bacterias forman parte de la microbiota normal del tracto respiratorio superior, del tracto gastrointestinal y del tracto genitourinario femenino.¹⁻³ Son microorganismos oportunistas, anaerobios, de crecimiento lento y fermentadores de carbohidratos, por lo que se cultivan en medios especiales enriquecidos. Las macrocolonias tienen aspecto irregular, son ásperas, multilobuladas, de color blanco cremoso y friables semejantes a «migajas de pan». Las microcolonias corresponden a un conglomerado de bacterias con microfilamentos, compactadas, de hasta 3 mm de tamaño, pueden observarse mediante tinción de hematoxilina-eosina o tinción impregnación con sales de plata y se conocen como «granos de azufre».^{4,5} La presencia de éstos en muestras de secreción purulenta o de tejido sustentan el diagnóstico.⁶

La infección comúnmente se presenta cuando hay disrupción de la mucosa, lo que causa invasión de los tejidos adyacentes y formación de tumoraciones con los gránulos de azufre característicos de esta especie. El espectro de la enfermedad se divide en cervicofacial, la más frecuente en 50-65%, abdominal en 20%, torácica en 15% y pélvica o cutánea en 3-5%.^{3,7,8} Entre los factores asociados se encuentran mala higiene bucal, traumatismos penetrantes, intervenciones quirúrgicas previas, diabetes mellitus, tratamiento con corticosteroides y trastornos pulmonares crónicos, como enfisema o bronquiectasias.⁶ Su diagnóstico es difícil y a menudo tardío, debido al bajo índice de sospecha. El aislamiento en medios de cultivo corresponde solo a 30-50%, debido a que son microorganismos exigentes que requieren medios enriquecidos especiales.⁸

REPORTE DE CASO

Se trata de un escolar femenino de ocho años que, en agosto de 2020, presentó cuadro de cetoacidosis diabética moderada como debut de diabetes mellitus tipo 1, con hemoglobina glicosilada de 16.5% y glucemia 425 mg/dL; en septiembre del mismo año

se agregó el diagnóstico de hipotiroidismo primario. Enviada al Centro Médico Nacional 20 de Noviembre del ISSSTE, en julio de 2021, para control y seguimiento por endocrinología pediátrica.

En noviembre de 2021, inició con dolor abdominal tipo cólico en fosa iliaca derecha, caracterizado por ser intermitente, sin irradiaciones, de predominio vespertino o nocturno, sin atenuantes ni exacerbantes. Acudió a evaluación médica en múltiples ocasiones integrándose diagnóstico de enfermedad inflamatoria intestinal, con tratamiento mediante analgésicos y procinéticos, sin mejoría clínica. En enero de 2022, notó aumento de volumen en la región umbilical, acompañado de hiporexia y diaforesis nocturna; durante la consulta de seguimiento con endocrinología pediátrica, la madre señala palpar un tumor abdominal; en esta valoración se identifican glicemias capilares elevadas entre 200 y 300 mg/dL, así como poco apego dietético.

Durante el examen físico se encontró en el abdomen un tumor palpable redondeado de aproximadamente 7 × 8 cm en la región periumbilical derecha, no móvil y doloroso a la palpación profunda, sin signos de irritación peritoneal. Fue valorada por cirugía pediátrica, sospechando divertículo de Meckel o adenopatía retroperitoneal y solicitaron ultrasonido abdominal; el ultrasonido informó tumor en fosa iliaca derecha (*Figura 1*). Oncología pediátrica hizo una valoración; ante la sospecha de un tumor estromal gastrointestinal, sugirieron biopsia, la cual fue diferida temporalmente por infección asintomática por SARS-CoV-2. Se continúa el

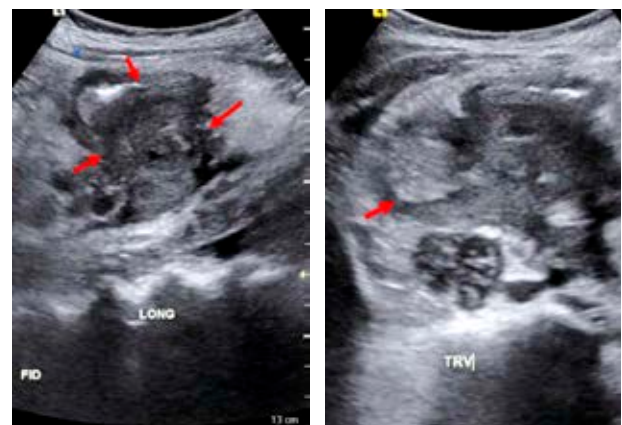


Figura 1: Ultrasonido abdominal que muestra tumoración en fosa iliaca derecha (flechas rojas); a descartar divertículo de Meckel versus adenopatía retroperitoneal.



Figura 2: Corte de tomografía computarizada, se observa proceso inflamatorio severo a nivel de asas intestinales secundario a proceso infeccioso localizado.

estudio, se realiza una tomografía computarizada de abdomen contrastada, la cual reporta aumento del diámetro de las paredes del íleon terminal, edema de pared, dilatación en ciego, colon ascendente y ángulo cólico derecho (Figura 2), además de una imagen heterogénea ovoide paravesical derecha de 21 x 20 mm de longitud, sin líquido libre (Figura 3). En febrero de 2022, se realizó resección en bloque de 20 cm de íleon terminal, válvula ileocecal, ciego con masa tumoral y 20 cm de colon ascendente, se envía muestra para cultivo (Figura 4). Reporte de patología refiere enteritis crónica activa perforada con plastrón reparador, fibrosis y tejido de granulación. En la tinción de hematoxilina-eosina se aprecian los granos de azufre, asociados a *Actinomyces spp* (Figura 5). Con valoración por infectología pediátrica, inició tratamiento con amoxicilina. Presenta buena evolución clínica y es egresada a su domicilio a las dos semanas de la intervención quirúrgica. El tratamiento continuó en forma ambulatoria completando 12 semanas de antibioticoterapia. Se citó para seguimiento por la consulta externa a los tres meses de la intervención, previa toma de resonancia magnética contrastada de abdomen, la cual se encontró sin evidencia de nuevas lesiones.

La paciente continúa en seguimiento por endocrinología pediátrica debido a que permanece con cifras de glucosa y hemoglobina glicosilada fuera de metas de control metabólico.

DISCUSIÓN

Presentamos un caso de tumor intestinal secundario a *Actinomyces spp*. La actinomicosis es un proceso de origen infeccioso caracterizado por una inflamación granulomatosa crónica, en la que se ha identificado a *Actinomyces israelii* como el principal agente etiológico. Se trata de un patógeno que se multiplica lentamente y se ramifica antes de dividirse, adquiriendo un aspecto semejante al de un micelio, razón por la cual el género inicialmente se clasificó como un hongo.^{1,4} Los pacientes afectados tienen alguna patología previa que los predisponen a la afectación intestinal, como la inmunosupresión (infección por VIH, diabetes mellitus, trasplantes), patologías gastrointestinales (apendicitis, diverticulitis, perforación intestinal, enfermedad inflamatoria crónica), cuerpos extraños (dispositivo intrauterino), traumatismos o neoplasias;⁴ sin embargo, alrededor de 50% de los pacientes con actinomicosis intestinal no tienen factores de riesgo asociados.⁵ La enfermedad se describe de curso clínico insidioso y lento debido a que es frecuente encontrar *Actinomyces spp*. como parte de la microbiota de las mucosas del tubo digestivo, del aparato respiratorio y del genital. Sin embargo, puede causar infecciones oportunistas cuando se rompe la barrera mucosa, originando una enfermedad inflamatoria crónica con manifestaciones clínicas variadas, que incluyen formación de múltiples abscesos y orificios fistulosos.^{2,6} Existen muchas formas de presenta-



Figura 3: En este corte de tomografía computarizada, se aprecia imagen ovoidea paravesical derecha (flecha roja).

Figura 4:

Visión macroscópica de pieza de resección intestinal con tumoración dependiente de ciego (flechas rojas).

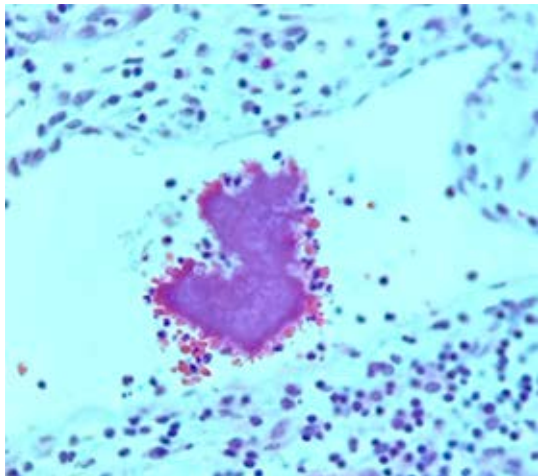
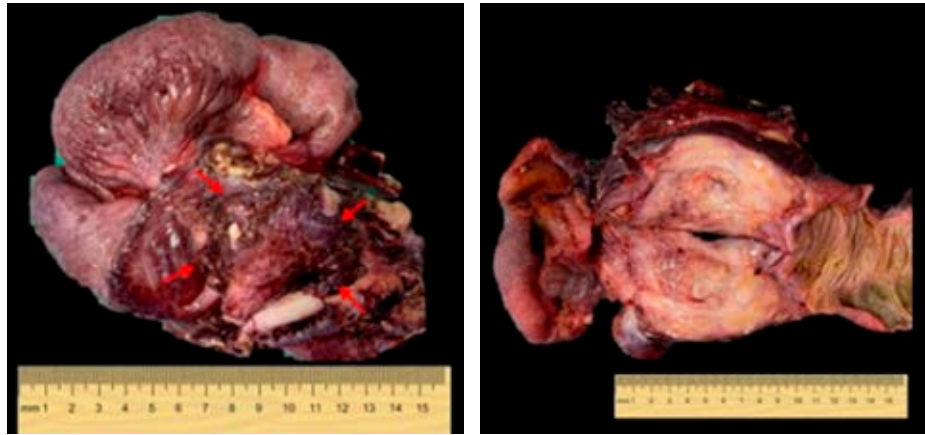


Figura 5: Tinción de hematoxilina-eosina. Se aprecian las «granos de azufre» característicos, que corresponden a bacterias agrupadas rodeadas de células inflamatorias.

ción de la infección, siendo las más frecuentes la actinomicosis cervicofacial (20-55%), la abdominopélvica (15-20%) y la torácica (10-15%).^{2,3,6} En su localización intraabdominal, la actinomicosis se desarrolla frecuentemente en la región ileocecal y rectosigmoidea, simulando otros procesos inflamatorios crónicos intraabdominales como enfermedad de Crohn, tuberculosis intestinal, neoplasias malignas o una enfermedad inflamatoria intestinal, como en el presente caso, por lo cual resulta un reto diagnóstico, pues no tiene una presentación clínica ni radiológica específica.^{3,7,9} Los síntomas más comúnmente asociados son anorexia, pérdida de peso, sudoración nocturna, dolor abdominal crónico y la presencia de una tumoración que, en la

mayoría, se confunde con un proceso neoplásico; en casos raros, se presenta en forma de abscesos abdominales con fístulas —o sin ellas— a otros sitios del abdomen o a la región perianal, que puede desencadenar un abdomen agudo.⁹⁻¹¹ El diagnóstico por imagen es complicado, la tomografía computarizada con contraste muestra generalmente la presencia de una tumoración con afectación mural y engrosamiento de los pliegues mucosos, que no es característica de la infección por *Actinomyces*. Se ha descrito que tiene tendencia a invadir los planos de las fascias, con compromiso de múltiples compartimientos y extensión hasta la pared abdominal.¹⁰ Los estudios de laboratorio no ofrecen datos destacables o sugestivos, generalmente se aprecian cambios asociados a cualquier otro proceso infeccioso.^{8,11} La clave para el diagnóstico es el análisis histopatológico con observación de «gránulos de azufre» y el cultivo de tejido o biopsia.⁸ En nuestra paciente se encontró como factor de riesgo el hecho de tener diabetes mellitus tipo 1, con mal control metabólico y mala adherencia terapéutica, siendo esta la única causa identificada. Según la literatura revisada, esta infección es común en la población adulta, por lo que la relevancia de este caso es que, a nuestro conocimiento, es el primer caso reportado en población pediátrica en nuestra institución.

El diagnóstico fue postoperatorio mediante estudio histopatológico, luego de realizarse la resección en bloque del área afectada, siendo ésta la forma diagnóstica más común, ya que los estudios de imagen fueron inespecíficos, por mostrar únicamente compromiso intestinal crónico, lo cual no es patognomónico de la enfermedad. Con respecto

al tratamiento, se recomienda la combinación de resección tumoral, drenaje del o los abscesos y tratamiento antibiótico prolongado para disminuir las recidivas; las especies de *Actinomyces* son sensibles a un amplio grupo de antibióticos, entre los cuales la primera línea abarca a la familia de las penicilinas a dosis altas. A la paciente se le indicó tratamiento con amoxicilina oral. Su evolución fue satisfactoria y fue egresada a su casa. La duración del tratamiento puede ir desde las 12 semanas hasta los 12 meses, lo cual depende de la localización afectada. Existen informes de curación en 90% de los casos después de recibir tratamiento médico y quirúrgico.⁸ La literatura reporta una mortalidad escasa tanto entre la población pediátrica como entre los adultos. Las medidas profilácticas para evitar recidivas radican en una adecuada higiene bucal, así como adecuado control y vigilancia de las patologías concomitantes.¹²

CONCLUSIONES

La actinomicosis intestinal es una infección rara asociada a múltiples factores de riesgo. Es uno de los tantos diagnósticos diferenciales que se deben tener en mente en el paciente pediátrico con dolor y tumor abdominal que se manifiesta principalmente con síntomas gastrointestinales como anorexia, pérdida de peso y dolor abdominal, los cuales son inespecíficos y dificultan el diagnóstico. Debido a que los pacientes generalmente presentan una tumoración abdominal, en múltiples ocasiones se sospecha de un proceso oncológico. Debido a su baja prevalencia en la edad pediátrica, en muy pocas ocasiones se tiene en cuenta como diagnóstico. De ahí la importancia de conocer la enfermedad y en qué momento sospecharla.

REFERENCIAS

1. Pamathy G, Jayarajah U, Gamlaksha, roshana constantine. Abdominal actinomycosis mimicking a transverse colon malignancy: a case report and review of the literature. *J Med Case Reports*. 2021; 15: 224.
2. Chinnakkulam Kandhasamy S, Rajendar B, Sahoo AK, Nachiappa Ganesh R, Goneppanavar M, Nelamangala Ramakrishnaiah VP. Rare abdominopelvic actinomycosis causing an intestinal band obstruction and mimicking an ovarian malignancy. *Cureus*. 2018; 10 (5): e2721. doi: 10.7759/cureus.2721.
3. Privitera A, Milkhu CS, Datta V, Rodriguez-Justo M, Windsor A, Cohen CR. Actinomycosis of the sigmoid colon: a case report. *World J Gastrointest Surg*. 2009; 1 (1): 62-64.
4. Garner JP, Macdonald M, Kumar PK. Abdominal actinomycosis. *Int J Surg*. 2007; 5 (6): 441-448.
5. Guevara-López JA, Aragón-Quintana C, Rodríguez-Zamacona A. Actinomicosis de colon: forma rara de abdomen agudo. Reporte de caso. *Rev Esp Med Quir*. 2015; 20: 90-93.
6. Karaca B, Tarakci H, Tumer E, Calik S, Sen N, Sivrikoz ON. Primary abdominal wall actinomycosis. *Hernia*. 2015; 19: 1015-1018.
7. García-Zúñiga B, Jiménez-Pastrana MT. Abdomen agudo por actinomicosis con afección colónica: reporte de un caso [Acute abdomen with actinomycosis of the colon: A case report]. *Cir Cir*. 2016; 84 (3): 240-244.
8. Alhumoud Z, Salem A. Actinomycosis presenting as an anterior abdominal mass after laparoscopic cholecystectomy. *BMJ Case Rep*. 2017; 2017: bcr2017220357. doi: 10.1136/bcr-2017-220357.
9. Liu V, Val S, Kang K, Velcek F. Case report: actinomycosis of the appendix--an unusual cause of acute appendicitis in children. *J Pediatr Surg*. 2010; 45 (10): 2050-2052.
10. Cruz Choappa R, Vieille Oyarzo P. Diagnóstico histológico de actinomicosis. *Rev Argent Microbiol*. 2018; 50 (1): 108-110.
11. Alonso Gómez J, Rodríguez Buyo I, Debén Sánchez M. Actinomicosis primaria de la pared abdominal. *Aten Primaria*. 2020; 52 (8): 572-573.
12. Balakrishnan M, Phan YC, Mclroy B, Leung E. "Fungating" tumour? No, it's bacterial! *BMJ Case Rep*. 2019; 12 (2): e227876. doi: 10.1136/bcr-2018-227876.

Correspondencia:

Hirad Felipe Pérez-Ávila

E-mail: hiradperez@gmail.com