

CASOS CLÍNICOS

Micetomas, presentación de dos casos con estudio clínico y anátomo-patológico

Mycetomas, report of two cases with clinical and pathologic study

Milagros Abad¹, Alfredo Chiclayo², Javier Arias Stella¹.

RESUMEN

Se presentan dos casos de micetoma de miembro inferior; enfermedad de baja prevalencia en nuestro país, cuyo reconocimiento y definición etiológica tiene implicancias terapéuticas decisivas.

Palabras clave: Micetoma; Actinomicetos; Eumicetos.

SUMMARY

We report two cases of mycetomas of the leg, disease of low prevalence in our country. A good diagnosis and aetiology definition are essentials for therapeutic conduct.

Key words: Mycetoma; Actinomycetes; Eumycetes.

INTRODUCCIÓN

Se denomina micetoma al síndrome anátomo-clínico caracterizado por lesiones inflamatorias deformantes, no dolorosas y fistulares que comprometen al tejido cutáneo, subcutáneo, aponeurosis y hueso¹. En el 70-75% de los casos afecta las extremidades inferiores por estar directamente expuestas a la infección, pero pueden comprometer también las manos u otras zonas corporales, y se relaciona con la costumbre de las personas de andar descalzos, sobretodo, en zonas tropicales^{2,3}. Este hábito,

también frecuente en zonas rurales de nuestro país, explica que en nuestro medio se hayan reportado casos aislados⁴.

Las lesiones son el resultado de la implantación traumática de un microorganismo del suelo que alcanza los tejidos y da lugar a abscesos, granulomas y fístulas, así como a estructuras granulares ("granos") que son características de los diferentes agentes causales. Estos son una amplia variedad de bacterias (actinomicetos) y hon-

¹ Instituto de Patología y Biología Molecular "Arias Stella", Lima, Perú.

² Hospital Nacional "Almanzor Aguinaga Asenjo" – EsSalud, Chiclayo, Perú.
Correo electrónico: javierjr@ariasstella.com

gos (eumicetos) saprofitos^{1,2}. Dado que el aspecto tumoral de las lesiones y los granos pueden confundirse con otras dolencias, se requiere efectuar un diagnóstico diferencial a fin de establecer una estrategia terapéutica específica.

Por ser una enfermedad de baja prevalencia en nuestro medio, nos ha parecido pertinente reportar dos casos que hemos podido estudiar recientemente.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1. Paciente mujer de 65 años, ama de casa, procedente de Túcume, sin antecedentes de importancia. Desde hace 30 años, posterior a traumatismo punzo-penetrante con astilla, presenta nodulaciones en pie izquierdo, inicialmente indoloras, que progresivamente aumentan en número. Después de diez años de enfermedad estas lesiones se ulceran y forman fístulas, drenando de ellas una secreción densa de color amarillento. Además se agrega dolor punzante, aumento de volumen y deformación de pie izquierdo. Refiere haber recibido tratamiento médico no especificado, sin mejorar.

Al examen físico se evidenció múltiples nódulos en el pie izquierdo con orificios fistulosos, de los cuales fluía secreción purulenta mezclada con gránulos amarillentos de aspecto de "granos de arena" asociado a edema, dolor y eritema perilesional. Pulso pedio no palpable. En región inguinal izquierda se observaron nódulos de iguales características. En la radiografía regional hubo compromiso óseo. El laboratorio reveló leucocitosis y VSG aumentada.

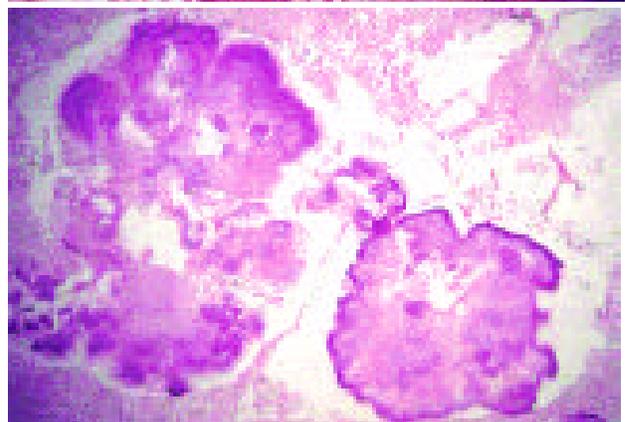
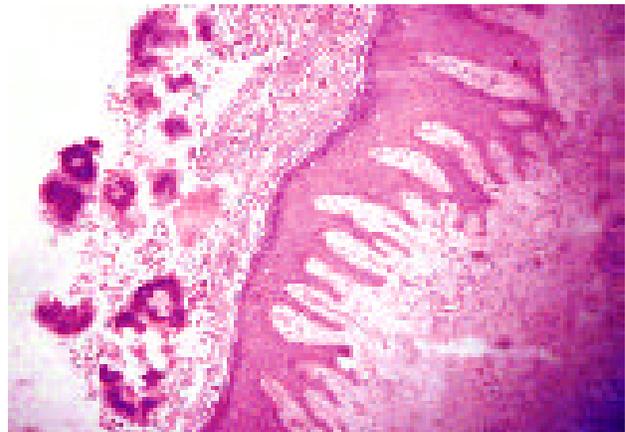
Ingresa por emergencia y por lo deformante de la lesión se decide AMPUTACIÓN SUPRACONDÍLEA DE MIEMBRO INFERIOR IZQUIERDO, la misma que recibimos en el laboratorio de Anatomía Patológica (**Fotografía 1**). Esta pieza quirúrgica midió 45x20x9.5cm y en ella se observaron múltiples nódulos que medían entre 0.7 y 8cm de diámetro y comprometían dorso, planta de pie y región distal de pierna izquierda, los cuales se mezclaban con áreas esfaceladas y ulceradas. Al corte se evidenció múltiples gránulos blanco amarillentos de 0.1 a 0.2cm de diámetro, rodeados por material purulento y necrótico. Por separado se recibe tejido de región inguinal izquierda que mide 5x3x2cm, de características similares a las ya descritas.

La microscopía con H-E mostró epidermis con hiperqueratosis, paraqueratosis y costras serohemáticas; y dermis con severo infiltrado inflamatorio mixto, con presencia de abscesos y granulomas que rodeaban a gránulos formados por hifas dispuestas en la periferia en imagen de "sol radiante". Además se evidenció el compromiso de hueso subyacente y de la masa en región inguinal. Con la finalidad de estudiar esta estructura micótica y de diferenciarla de otros microorganismos (bacterianos) se realizaron cortes para las coloraciones



Fotografía 1. Producto de amputación supracondílea de miembro inferior izquierdo con lesiones macroscópicas nodulares de color blanco amarillento.

PAS, Grocott, en los que se identificó claramente el patrón cartográfico del mismo y la respuesta fuertemente positiva a estas tinciones (**Fotografías 2 y 3**).



Fotografías 2 y 3. Se observa un actinomicetoma de contorno cartográfico bien delimitado con bacterias de forma filamentosas dispuestas en imagen de sol radiado. PAS 10X y 20X.

Combinando la morfología y los resultados histoquímicos se concluyó que estábamos frente a un cuadro de MICETOMA POR ACTINOMYCES.

A la fecha la evolución de la paciente ha sido favorable, recibiendo como tratamiento complementario antibióticos (cotrimoxazol). La intervención quirúrgica en este caso se justificó por lo avanzado y deformante de la lesión, aunque se han encontrado reportes de regresión espontánea.

Caso 2. Paciente varón de 60 años, agricultor, procedente de Huancayo, sin antecedentes de importancia. Presenta desde hace siete años una tumoración en pie derecho, inicialmente indolora, de crecimiento progresivo y de la cual drena secreción amarillenta densa. Ingresa al hospital para resección local del tumor.

Al examen físico se evidenció formación tumoral multinodular en dorso de pie derecho, que mide 8x6x1.5cm aproximadamente, de bordes irregulares, poco móvil y que presenta solución de continuidad en el borde posterior, del cual drena secreción purulenta. El laboratorio reveló leucocitosis y VSG aumentada.

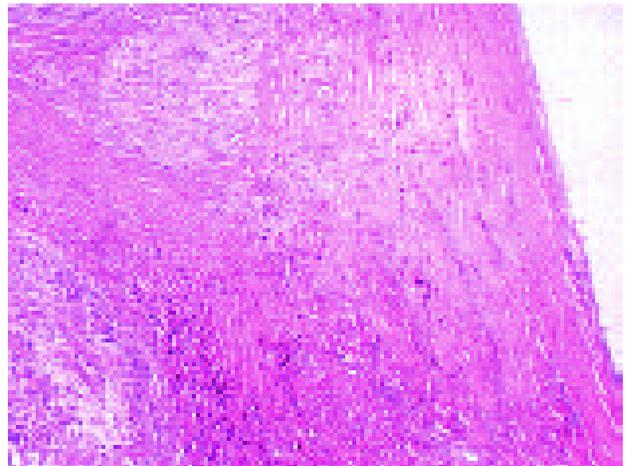
Se plantea el diagnóstico clínico de tumor de partes blandas y se realiza la extirpación quirúrgica total. En el laboratorio recibimos un fragmento de tejido de color blanco grisáceo que medía 7.5x5x1cm y pesaba 33g. Al corte se observó una superficie con múltiples nódulos amarillentos con centro negruzco; de consistencia firme (**Fotografía 4**).



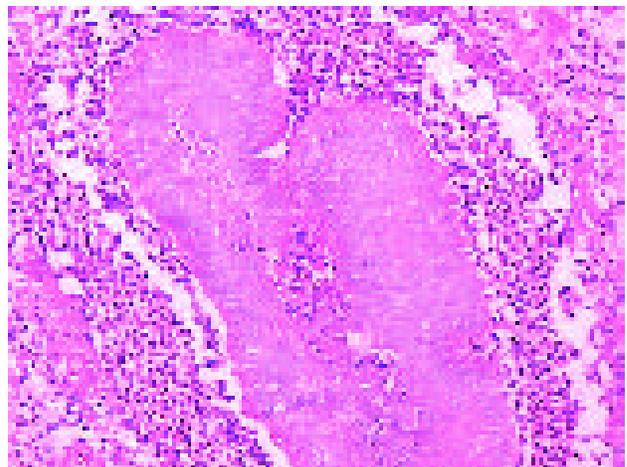
Fotografía 4. Superficie de corte de la tumoración multinodular de pie en la que se observa gránulos amarillentos de borde definidos, típicos de micetoma.

La microscopía mostró, al igual que en el caso anterior, un severo infiltrado inflamatorio mixto, con presencia de micro-abscesos y granulomas, en medio del cual

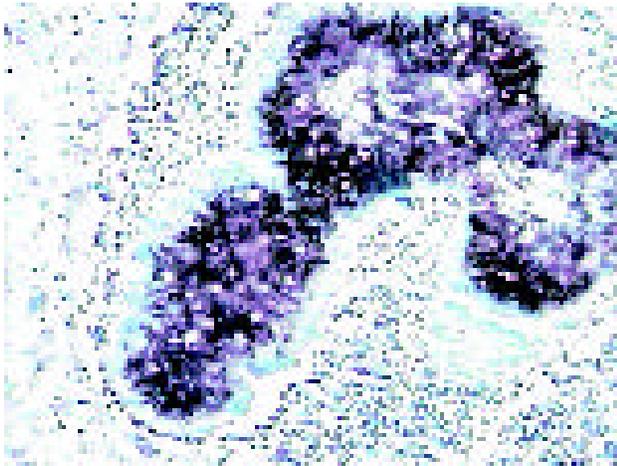
se encontraban gránulos centrales donde se distinguían agregados de estructuras micóticas micelares y conidias dispuestas en imagen de "sol radiante", fibrosis y reacción fagocitaria con pigmento hemático en la periferia. Al igual que en el caso anterior se realizaron tinciones con PAS, Grocott y azul anciano, en los que se identificó el patrón cartográfico y la respuesta fuertemente positiva a estas coloraciones (**Fotografías 5-7**). Con estos resultados concluimos que se trataba de un cuadro de MICETOMA POR ACTINOMYCES. Aunque el acto quirúrgico fue exitoso y la evolución postoperatoria favorable, es importante comentar que el paciente pidió alta voluntaria y regreso a casa sin tratamiento médico específico por lo que la posibilidad de recidiva de la lesión es alta.



Fotografía 5. Vista panorámica del proceso inflamatorio perigranular. H-E 20X.



Fotografía 6. Actinomietoma clásico rodeado de denso infiltrado inflamatorio mixto. H-E 40X.



Fotografía 7. Con la tinción de plata se observa la reacción de los polisacáridos constituyentes del cemento de unión del actinomictoma. H-E 40X.

DISCUSIÓN

El micetoma se ha reportado en diversas partes del mundo³⁻⁹ y se presenta en variadas formas clínicas: infecciones primarias agudas, crónicas o micetoma nocardial y diseminadas^{3,10}. La enfermedad afecta principalmente a hombres, en una proporción de 3 ó 4:1 en relación con las mujeres; esta diferencia es mucho menor en niños. El rango de edad va entre 31 y 45 años,

siendo más raro después de los 60 años^{2,6}. Es más común en personas que habitan en zonas rurales, principalmente campesinos, como pudo comprobarse en el segundo caso reportado por nosotros.

El micetoma, sea actinomicético (bacterias) o eumicético (hongos verdaderos), es un proceso de afectación generalmente unilateral, que se inicia como una pápula o nódulo indoloro en el sitio de la inoculación. Luego aparecen nuevas lesiones y trayectos fistulosos que se intercomunican entre sí, drenando en forma crónica granos de diferente color. Muchas veces invaden estructuras subyacentes, produciendo periostitis y osteomielitis. Al evolucionar forman cicatrices más o menos retráctiles, fibrosis con hipo e hiperpigmentación^{2,5,6}.

Existen por lo menos 20 especies de actinomicetos y hongos superiores que pueden provocar micetomas, siendo los más frecuentes los *Actinomycetos*: *Nocardia brasiliensis* y *Actinomadura*. Éstos se organizan en agregados de hifas o filamentos bacterianos, constituyendo los gránulos que pueden ser de diferente tamaño, color y consistencia dependiendo de la especie causante^{10,11}. Estas características permiten hacer la diferenciación etiológica, incluso desde las primeras observaciones clínicas (**Cuadro 1**). En los casos que hemos reportado vimos que los gránulos descritos fueron de color amarillento, que permite identificarlos como correspondientes al grupo de los actinomicetomas^{4,5}.

Cuadro 1. Características morfológicas de los gránulos.

Categoría	Color	Especie	Tamaño	Consistencia
Actinomicetos	Blanco-amarillo	<i>Nocardia brasiliensis</i>	20 a 200µ	Blando
		<i>Nocardia asteroides</i>	20 a 200µ	Blando
		<i>S. somaliensis</i>	2 m m	Duro
	Amarillo	<i>Actinomyce madurae</i>	1 a 10mm	Blando
Rojo	<i>Actinomyce pellitieri</i>	200 a 500µ	Firme	
Eumicetos	Blanco	<i>Scedosporium</i>	500µ a 2mm	Blando
		<i>Acremonium sp</i>	500µ a 1.5mm	Blando
	Negro	<i>Madurilla madurae</i>	1 a 5mm	Firme
		<i>Madurilla grises</i>	1 m m	Firme

Revisando las publicaciones realizadas en América en países como México, Ecuador, Brasil y Venezuela, encontramos que la población más afectada fue la masculina, en su mayoría del área rural, siendo la zona orgánica más comprometida el pie y el agente más frecuentemente aislado la *Nocardia brasiliensis*⁵⁻⁹. En nuestro país se han reportado po-

cos casos, siendo la mayor casuística la de Chávez¹⁰, con 16 pacientes (14 varones y 2 mujeres), tres procedentes de Piura, con lesiones en brazos y piernas, 12 de éstos catalogados como eumicetomas, lo que difiere de lo encontrado en las otras series americanas. Con respecto a los casos presentados debemos subrayar que, en armonía con lo descrito en la litera-

tura, la presentación fue en las extremidades inferiores. En cuanto a la procedencia un caso, al igual que la mayoría de los reportados en nuestro medio, procede de la zona norte del Perú. No hay coincidencia, sin embargo, con el agente patógeno que en nuestros casos correspondieron a actinomietomas.

En relación con las manifestaciones y evolución clínica nuestros casos coinciden con los reportes previos, que plantean que estas infecciones se instalan de forma lenta y progresiva, producen múltiples fístulas por donde segregan material granular y purulento, y pueden dejar un miembro inútil por la gran destrucción de los tejidos, tanto óseos como de partes blandas^{1,5,9,10}.

Dado que estas lesiones pueden confundirse con otros padecimientos, se requiere un buen diagnóstico diferencial¹. Lavallo clasifica los procesos fistulosos de acuerdo a la presencia y tipo de grano, tipo de organismo causal y modo de inoculación. En esta clasificación, los procesos fistulosos los agrupa en tres clases: los micetomas, los paramietomas y los pseudomietomas^{6,11}.

Aunque el diagnóstico es básicamente clínico, el cultivo del agente y la tinción de un corte histopatológico son las herramientas más rápidas y confiables para una precisión diagnóstica^{1,10,12}. Como hemos comprobado en nuestros casos, en el estudio microscópico se observan granulomas, con polimorfos nucleares, células plasmáticas, linfocitos, histiocitos, células gigantes y neoformación vascular. Habitualmente los «granos» son observados en medio de un absceso constituido por leucocitos polimorfonucleares

y rodeados de las células descritas anteriormente. Fragmentos de granos pueden verse ocasionalmente dentro de los vasos sanguíneos, lo que explicaría la rara, pero posible, diseminación hematogena^{5,9-11}.

Palma y col.^{1,12} compararon la constitución química del cemento de unión en los granos producidos por *Actinomadura* y *Nocardia* con la reacción de la quitina, proteína estructural de los eumietomas. Como ellos, analizamos la historreacción con PAS, azul alciano y Grocott, lo que nos condujo a concluir que estábamos delante de formas de actinomietoma probablemente *madurae*. En este grupo se observan granos grandes de 1 a 10mm, sus filamentos se tiñen intensamente con hematoxilina y se distinguen con claridad^{1,3,12}. Su forma es cartográfica, con un borde eosinófilo (pseudoclavas) que se dispone en imagen de sol radiado^{1,2,10}. Lo diferenciamos de *Nocardia* por la reacción inflamatoria perigranular menos intensa en Actinoma dura y la ausencia de respuesta a la tinción azul alciano en nocardia. En el **Cuadro 2** se presenta las características histoquímicas de los gránulos.

El tratamiento depende del agente causal. Los actinomietomas responden más a los antimicrobianos que los eumietomas. Se considera que el 90% de los primeros son curables con tratamiento médico, aun con afectación ósea, y que el tratamiento quirúrgico favorecería su diseminación hematogena. Para eumietomas pequeños se indica la resección local, pero los casos muy extensos pueden requerir amputación. Debe complementarse con tratamiento médico con azoles, el mismo que se prolongará de 4 a 24 meses para evitar recidivas⁴.

Cuadro 2. Características histoquímicas de los gránulos

	Actinomadura	Nocardia	Madurella
Morfología del borde	Cartográfico	Arriñonado	Geográfico
H - E	Violeta +++	Violeta ++	Violeta ++
PAS	Magenta +++	Magenta +++	Vino +++
Grocott	Negro +++	Negro +++	Negro +++
Azul alciano	Azul +++	Negativo	Negativo (Marrón +++)
Distribución del color	De contraste	Uniforme	De contraste
Reacción inflamatoria	+ +	+ + +	+ a ++

Extraído y modificado de: Palma A, Castrillón L, Padilla C, Reyes F. Caracterización histoquímica de micetomas por *Actinomadura Madurae*, *Nocardia brasiliensis* y *Madurella mycetomatis*. *Dermatología Rev Mex.* 2005;49:51-58.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. PALMA A, CASTRILLÓN L, PADILLA C, REYES F. Caracterización histoquímica de micetomas por *Actinomadura madurae*, *Nocardia brasiliensis* y *Madurella mycetomatis*. *Dermatología Rev Mex*. 2005;49:51-58.
2. ARENAS R. *Micología Médica Ilustrada*. México: Mc Graw-Hill Interamericana SA; 1993.
3. GUEVARA M, NAVARRO A, ARANZAMENDI C, QUISPE N, CHÁVEZ V. Micetoma por *Nocardia brasiliensis*: reporte de caso. *Rev Peru Med Exp Salud Publica*. 2003;20(3):159-61.
4. BURSTEIN Z. Aportes al diagnóstico de las micosis humanas en el Perú. Lima: Universidad Nacional Mayor de San Marcos; 1970.
5. TORRES M, MEDINA F. Micetoma en glúteo. *Gaceta Dermatológica Ecuatoriana*. 1999;2(1). Publicación en línea disponible en: http://www.medicosecuador.com/gde/vol2num1_1999/micetomia_en_gluteo.htm
6. SERRANO JA, SANDOVAL AA. El Micetoma: Revisión. *Revista Venezolana de Microbiología*. 2003;23(1).
7. VERGARA S. Micetoma y factores sociodemográficos en el estado Lara (1976-1997). Trabajo de Ascenso, Profesor Titular (Mimeografiado). ULA, Mérida, Venezuela. 2001.
8. DÁVILA M, ARENAS R. Micetomas en el estado de Guanajuato. *Dermatol Rev Mex*. 1996;40(6):408-411.
9. PÉREZ-BLANCO M, HERNÁNDEZ-VALLES R, FERNÁNDEZ-ZEPPELFELDT G, YEGRES F. Micetoma: Reporte de tres casos en el estado Falcón, Venezuela. *Invest Clin*. 1996; 37(1):61-73.
10. CHÁVEZ M, ROMERO O, GALARZA C. Clinical and microbiological aspects of micetoma. En: 58th Annual Meeting of the American Academy of Dermatology. San Francisco, 2000. p.10-5.
11. LVALLE PA. Micetomas: concepto, nomenclatura, clasificación y diferenciación. Resúmenes, II Simp. Int. de Micetomas Taxco Gro. México, 1987.
12. PALMA A, CASTRILLÓN L, PADILLA C. Caracterización histoquímica de micetomas por *Actinomadura madurae*. *Dermatología Rev Mex*. 1999;43(5):195-200.