

## **COMUNICACIONES BREVES**

# Eumicetoma recidivante en pie, un diagnóstico postquirúrgico

Recurrent eumycetoma in foot, a postoperative diagnosis

### Oscar Cueva<sup>1</sup>, Gladys Chanco<sup>2</sup>, Juan Carlos-Luna<sup>3</sup>

#### **RESUMEN**

El eumicetoma es una enfermedad infecciosa crónica granulomatosa subcutánea localizada de origen fúngico. La tríada clínica se caracteriza por una masa subcutánea indolora, la formación de tractos fistulosos subcutáneos y exudados que contienen agregados fúngicos llamados "granos". Se reporta el caso de micetoma fúngico recidivante de probable agente etiológico de género Madurella, un diagnóstico clínico e histopatológico realizado postexéresis quirúrgica. Se trata de un paciente varón de 28 años de profesión militar, quien presentó lesión a nivel de dorso de pie derecho. Se apreció evolución favorable al tratamiento con Itraconazol 200 mg/día, cicatrización completa de la lesión, y sin recidiva hasta el año de seguimiento.

PALABRAS CLAVE: Micetoma, Perú, Madurella, Tumor, Granos negros, Recidivante, Exéresis.

Dermatol Peru 2020: 30 (4): 340-345

#### **ABSTRACT**

Eumycetoma is a localized subcutaneous granulomatous chronic infectious disease of fungal origin. The clinical triad is characterized by a painless subcutaneous mass, the formation of subcutaneous fistulous tracts, and exudates containing fungal aggregates called "grains". The case of recurrent fungal mycetoma of a probable aetiological agent of the genus Madurella is reported, a clinical and histopathological diagnosis were made after surgical post-exeresis. This is a 28-year-old male patient from military profession, who presented an injury at the back of his right foot. favorable evolution was observed with treatment with Itraconazole 200 mg / day, complete healing of the lesion, and no recurrence until one year of follow-up.

**KEY WORDS:** Mycetoma, Perú, Madurella, Tumor, Black grains, Relapsing, Exeresis.

- Médico residente del Servicio de Dermatología del Hospital Militar Central, Lima - Perú.
- 2. Médico asistente del Servicio de Dermatología del Hospital Militar Central,
- Médico patólogo del Servicio de Anatomía patológica del Hospital Militar Central, Lima - Perú.

#### INTRODUCCIÓN

El micetoma es una enfermedad infecciosa crónica. subcutánea, de tipo granulomatoso, endémica en regiones tropicales y subtropicales, que puede ser causada por más de 56 microorganismos diferentes, incluyendo bacterias, denominándose entonces actinomicetoma, y hongos, denominándose entonces eumicetoma1. La tríada clínica del Eumicetoma es característica y está constituida por aumento de volumen poco doloroso inicialmente, formación de fístulas y exudado purulento o seropurulento que contiene «granos». Se trata de una patología adquirida generalmente por implantación accidental en la piel del microorganismo, generalmente en personas de ámbitos rurales o trabajadores del campo<sup>4</sup>. Se puede extender e involucrar estructuras profundas, resultando en destrucción, deformidad y pérdida de la función, llegando en algunas ocasiones a ser fatal<sup>2</sup>. Las características clínicas de los micetomas micóticos y de los actinomicetomas son muy parecidas. Las localizaciones más frecuentes son los miembros inferiores<sup>4</sup>. En un primer momento, la infección aparece como un nódulo duro e indoloro que se extiende lentamente en la superficie mediante el desarrollo de pápulas y de fístulas secretantes. Las zonas originales de infección se distorsionan y se deforman debido al edema del tejido local, la formación de fístulas crónicas y el compromiso óseo<sup>3</sup>. Para el diagnóstico es importante la presentación clínica, y como puede ser difícil, especialmente en las lesiones iniciales con pocos datos clínicos (minimicetoma), son indispensables estudios complementarios tanto micológicos como de gabinete<sup>2</sup>. Se presenta un caso clínico de Eumicetoma recidivante en dorso de pie con diagnóstico mediante hallazgos clínicos, histopatológicos e imagenológicos.

#### **CASO CLÍNICO**

Se presenta el caso de un paciente varón de 28 años, natural de Lambayeque y procedente de Lima de ocupación militar, antecedente de viajes a la ciudad de Bagua (Dpto. Amazonas) y a la localidad de Sauce - Tarapoto (Dpto. San Martin) ambas zonas de la selva de Perú. Refiere tiempo de enfermedad de 5 años, con aparición de "bultito" en dorso de pie derecho, por lo cual consulta con médico particular quien le refiere el diagnóstico de probable lipoma, y le recomienda exéresis quirúrgica total, la cual fue realizada sin estudio de anatomía patológica. Dos años después de la cirugía, refiere aparecen de nuevos "bultitos" en misma zona, que al manipular nota la presencia de una secreción negruzca de apariencia tipo "granos de café". No le toma importancia a las nuevas lesiones y no consulta por ellas. En su evolución nota aumento del tamaño de las lesiones. y que éstas se aglomeraban formando una tumoración de aproximadamente 7 centimetros de diámetro con formación de heridas y aumento del exudado (figura Nº 1), además presentaba limitación funcional del pie, que se acentuaba con el uso de borceguies.

Por lo que acude a consultorio de traumatología donde le solicitan ecografia de partes blandas de dorso de pie derecho mostrando una tumoración heterógena con hiperecogenicidades en su interior (figura Nº 2) y una resonanacia magnética de pie derecho con contraste mostrando nódulos subcutáneos aglomerados de apariencia benigna a nivel de tercero, cuarto y quinto dedo a considerar probable etiología infecciosa, descartando compromiso óseo (figura Nº 3). Ante estos hallazgos la especialidad de traumatología decide la exéresis de la tumoración.

Los hallazgos histopatológicos son reportados como probable micosis profunda, por lo cual el servicio de traumatología realiza una interconsulta a Dermatología. Al examen físico, post-exéresis observamos herida operatoria localizada entre el 4to. y 5to. metatarsiano de pie derecho, cubierta por una costra lineal de aproximadamente 6cm



Figura Nº 1. Foto tomada por el paciente. Se observa tumoración mamelonada de bordes definidos y superficie irregular en dorso de pie derecho.

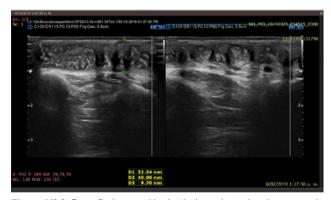


Figura Nº 2. Ecografía de partes blandas de dorso de pie derecho, mostrando tumoración heterogénea con hiperecogenicidades en su interior.



Figura Nº 3. RMN con contraste de pie derecho mostrando nódulos subcutáneos aglomerados de apariencia benigna a nivel de tercero, cuarto y quinto dedo a considerar probable etiología infecciosa.

con muy escasa secreción serohemática, rodeada de edema y flogosis moderada, levemente dolorosa a la palpación. Acudimos a imágenes fotográficas tomadas por el paciente previo a la cirugía, donde observamos una tumoración delimitada de aspecto mamelonado de aproximadamente 7x 6 cm de diámetro de bordes definidos de superficie nodular e irregular con presencia de pequeños orificios puntiformes, por donde drenaba la secreción según historia (figura Nº 4).

Ante éstos hallazgos solicitamos correlato clinico patológico donde se muestra en la macroscopía, de la pieza operatoria seccionada, una tumoración que contiene un material negruzco en su interior, de apariencia de "granos de café" compactos agrupados y separados entre sí, por tractos fibrosos (figuras Nº 5).

En la microscopía, se muestran áreas de fibrosis y la presencia de abscesos conformados por granos compactos que están rodeados de infiltrado inflamatorio denso compuesto por linfocitos, histiocitos y algunas celulas gigantes multinucleadas, áreas de necrosis y a mayor aumento se observan esporas e hifas septadas, coloración PAS(+) (figuras N° 6 y 7). Dentro de los exámenes auxiliares realizados, se encontró una analítica y bioquímica sanguínea dentro de los rangos normales, el cultivo micológico y cultivo Gram de la secreción serohemática escasa que se realizó de la herida post-operatoria, fueron negativos. Con los hallazgos clínicos, histopatológicos característicos y los

Figura Nº 4. Imagen proporcionada por el paciente. Tumoración en dorso de pie derecho; señaladas dentro de círculo rojo orificios puntiformes por donde drenaba secreción similar a "granos de café".

de diagnóstico por imágenes, se concluyó como un caso de eumicetoma recidivante de probable agente etiológico de género Madurella.

El paciente recibió tratamiento médico con Itraconazol 100mg cada 12 horas por 12 meses, mostrando mejoría clínica importante a las 2 semanas de tratamiento (figura Nº 8) y evolución favorable sin recidiva en los controles posteriores, mostrando cicatrización completa de las lesiones al año de seguimiento.

#### **DISCUSIÓN**

Los micetomas engloban un grupo de enfermedades infecciosas crónicas que afectan predominantemente la piel aunque también puede comprometer estructuras más profundas. Tienen diversidad etiológica agrupándose en agentes bacterianos y fúngicos4.



Figura Nº 5. Imagen de la macroscopía de la pieza operatoria. Se observan gránulos negros en su interior, semejantes a "grános de café".

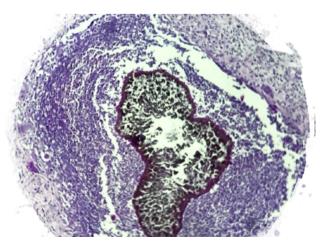


Figura Nº 6. H-E. Mostrando absceso formado por gránulos con borde de aspecto geográfico rodeada por reacción inflamatoria linfohistiocitaria.

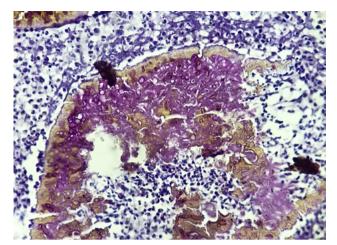


Figura Nº 7. Coloración PAS(+) mostrando hifas y esporas (formando filamentos pigmentados).



Figura Nº 8. Evolución del paciente a los dos meses de tratamiento con Itrazonazol.

Principalmente, pero no de manera exclusiva, los micetomas se encuentran en los climas tropicales secos donde la tasa anual de precipitaciones es baja. Son infecciones esporádicas muy poco comunes incluso en zonas endémicas. Los actinomicetomas causados por especies Nocardia son más frecuentes en Centroamérica y México. En otras zonas del mundo el microorganismo típico es el hongo Madurella mycetomatis<sup>3</sup>. En el Perú se han reportado pocos casos. La mayor casuística es la de Chávez con 16 pacientes, de los cuales 14 fueron varones y 2 mujeres, 3 procedentes de zonas tropicales (Piura), con lesiones en brazos y piernas;

12 de estos catalogados como eumicetomas<sup>10</sup>. Igualmente Sánchez et al, indican que los micetomas actinomicóticos se distribuyen Piura, Lambayeque, Cajamarca, Junín y Arequipa y mientras que los micetomas eumicóticos se presentan mayormente en Piura, Lambayeque, La Libertad, Amazonas y Ancash<sup>4</sup>. En nuestro caso es un paciente varón natural de Lambayeque con antecedentes de viajes a la selva peruana entre ellos a la ciudad de Bagua departamento de Amazonas.lo que se corresponde con lo descrito con los autores antes mencionados. Alrededor del 60% de micetomas se producen por actinomicetos y 40% por eumicetos4.

La exploración física se caracteriza por tres signos: tumefacción de la zona afectada, tractos fistulosos y presencia de gránulos. Los tendones y nervios son generalmente resistentes a la infección mientras que el hueso se ve con frecuencia afectado y destruido<sup>1</sup>.Los miembros inferiores seguidos de los superiores, son las regiones más afectadas, como en el caso de nuestro paciente, el pie es la topografía más comúnmente afectada, representando el 82% de los casos. En las lesiones supurativas se pueden observar los granos a simple vista<sup>2</sup>.

En cuanto a la etiopatogenia el micetoma puede ser causado por hongos (eumicetoma) o bacterias (actinomicetoma) con características clínicas similares. La enfermedad más probablemente se inicia después de un trauma menor que inocula el microorganismo causante en el tejido subcutáneo. El actinomicetoma puede ser causado por agentes anaerobios (Actinomyces israelii) que se encuentran en cavidades naturales de humanos u otros animales, principalmente en la boca o las amígdalas, o por agentes aeróbicos que entran en el cuerpo humano a través de heridas penetrantes. Los principales agentes causales se detallan en la tabla siguiente  $(Tabla 1)^4$ :

Tabla I. Principales agentes causales de los micetomas (Modificado de Garcia R. Micetoma por Nocardia sp.: reporte del Cusco - Perú. Folia dermatol. Peru 2012; 23 (2): 73-79.)

Hongos	Bacterias
▲ Madurella grisea	Nocardia brasiliensis
Madurella mycetomatis	Nocardia asteroides
<ul> <li>Leptosphaeria senegalensis</li> </ul>	Nocardia otitidiscaviarum
▲ Allescheria boydii	Nocardia farcinica
<ul> <li>Pyrenochaeta romeroi</li> </ul>	Nocardia transvalensis
<ul> <li>Exophiala jeanselmei</li> </ul>	Actinomadura madurae
<ul> <li>Curvularia geniculata</li> </ul>	Actinomadura pelletieri
Fusarium moniliforme	Streptomyces somaliensis
Neotestudina rosatti	Nocardiopsis dassonvillei

Una vez que el hongo penetra e inocula en el tejido subcutáneo, permanece indolente hasta extenderse a los tejidos más profundos y huesos<sup>11</sup>.

Para el diagnóstico es importante la presentación clínica, y como puede ser dificil, especialmente en las lesiones iniciales con pocos datos clínicos, son indispensables estudios complementarios tanto micológicos como de laboratorio<sup>2</sup>.

El estudio anatomopatológico se considera el siguiente paso cuando el examen directo falla. De forma característica se observan granos rodeados por un granuloma de tipo supurativo, localizado en la dermis o en el tejido celular subcutáneo. Alrededor de la zona de supuración se encuentran histiocitos en empalizada; en el exterior de esta empalizada puede observarse un infiltrado inflamatorio mixto compuesto por neutrófilos, linfocitos, células plasmáticas e histiocitos, acompañado de fibrosis progresiva. Las tinciones especiales, como Gomori Grocott, el ácido peryódico de Schiff (PAS) y la tinción de Gram, pueden ayudar a distinguir las variedades de los granos.

Algunos autores hacen referencia a la morfología e histoquímica de los gránulos, para diferenciarlos entre eumicetomas y actinomicetomas asi como entre los diferentes generos y especies, señalan que en los eumicetomas el borde de estos gránulos es de forma geografica, a la coloracion de H-E se muestran de color violeta y en la coloracion PAS toman un color vino, caracteristicas encontradas especialmente en *M. mycetomatis*. En contraste, la morfología del borde de los actinomicetomas tiende a ser de forma cartográfica, de igual manera de color violeta a la H-E pero difieren en que estos presentan una coloracion magenta en el PAS<sup>8,9</sup>. Los hallazgos descritos por estos autores en cuanto a las características de los eumicetomas se corresponden en los encontrados en la histopatología de nuestro caso.

Las técnicas de imagen se utilizan para determinar la extensión de las lesiones, ya que, como mencionamos previamente, el eumicetoma puede afectar los tejidos profundos e incluso los huesos (en especial, en las lesiones de larga evolución debe descartarse el compromiso óseo). En el ultrasonido, la presencia de lesiones hipoecoicas que contienen pequeños focos hiperecoicos se considera característica del micetoma; se asocian a la presencia de granos, cápsula e inflamación periférica. En general, se visualizan mejor en el eumicetoma que en el actinomicetoma, ya que este suele presentar menos fístulas, las cuales dificultan la señal de los ecos hiperreflectivos<sup>2</sup>.

Asimismo algunos estudios revelan otras características diferenciales entre la presentacion ecográfica del

actinomicetoma y el eumicetoma como son la cantidad de cavidades observadas que suele ser mayor en el eumicetoma y la distribución de las imágenes hiperecoicas que suelen estar más dispersas en la cavidad en el eumicetoma y más acentuadas en la base de las cavidades en el actinomicetoma<sup>5,6</sup>. Los hallazgos observados en la ecografía de nuestro paciente son más compatibles con la presentación ecográfica del eumicetoma que de los descritos en los actinomicetomas.

En cuanto a la resonancia magnética su principal utilidad es la de valorar la extensión del micetoma y si existe compromiso óseo y a que nivel se presenta, en algunos trabajos ha demostrado ser incluso superior a la Tomografia axial computarizada para este propósito<sup>7</sup>.

El cultivo es primordial para identificar los organismos causantes de micetomas. La descarga purulenta muestreada debe centrifugarse, sedimentarse y lavarse muchas veces con solución salina para eliminar contaminantes. El crecimiento de la colonia debe controlarse diariamente y las sospechosas deben replicarse en nuevos medios para identificar rápidamente agentes etiológicos<sup>11</sup>. El color de los granos puede dar pistas diagnósticas del cuadro, por ejemplo, los granos negros siempre corresponden a hongos, mientras que los rojos siempre corresponden a bacterias, por otra parte, los granos de color blanco o amarillo pueden corresponder tanto a bacterias como a hongos por lo que deben ser identificados por microbiología o histopatología<sup>4</sup>.

El diagnóstico diferencial se efectúa con otras infecciones bacterianas, osteomielitis, tuberculosis cutáneas típicas o atípicas, actinomicosis, algunas infecciones micóticas como esporotricosis, coccidiodomicosis, y cromoblastomicosis según las regiones endémicas. Se debe considerar también sífilis, granuloma a cuerpo extraño y tumores de tejidos blandos<sup>4</sup>.

El tratamiento de los eumicetomas incluye el desbridamiento de los tejidos afectados combinado con terapia antifúngica, usualmente durante un año pudiendo prolongarse de 18 a 24 meses. Los azoles son los medicamentos más utilizados, por su disponibilidad y su bajo costo en comparación con otros antifúngicos. El itraconazol (200 - 400 mg/día) es considerado de primera elección2. Con respecto al tratamiento quirúrgico, un estudio nos indica en que el procedimiento más realizado en su serie de pacientes fue la excisión quirúrgica amplia y cierre primario cuando las lesiones fueran menor a 5cm, además de que no existiera compromiso óseo y en eumicetomas mayores a 10 cm realizaron excisión más colgajo. Este artículo también nos menciona que el protocolo que ellos utilizaron en sus

pacientes fue el Itraconazol por via oral en dosis de 200 a 400mg. Para los micetomas menores a 5cm indicaron Itraconazol sólo para el postoperatorio por 3 meses, y para lesiones moderadas (entre 5 y 10cm) y grandes (mayores a 10 cm), indicaron Itraconazol via oral 6 meses antes y hasta 6 meses después de la intervención quirúrgica. Asimismo nos indica que el eumicetoma en contraste con los actinomicetomas, tienen una pobre respuesta a la terapia antimicótica sistémica por lo cual el tratamiento quirúrgico es una opción válida en estos casos<sup>12</sup>.

Consideramos de importante interés académico la presentación de éste caso, al ser un paciente con clínica característica de curso crónico, sometido a exéresis quirúrgica de lesión en dos oportunidades, manejado así por un diagnóstico no acertado desde el principio. Al realizar el correlato clínico correspondiente se llega al diagnóstico definitivo, nuestro principal incoveniente fue no tener una muestra significativa para el cultivo micológico correspondiente, pero con lo presentado podemos concluir, en la posibilidad de que se trataría de un eumicetoma por Madurella micetomatis. Recalcamos que la histopatología y los estudios microbiológicos son de vital importancia en el manejo de éstos casos, para establecer la terapeútica específica temprana y evitar las complicaciones de éstas infecciones de larga evolución, cuando no son tratadas adecuadamente.

#### REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Valdés TF et al. Eumicetoma por Madurella mycetomatis: primer caso importado identificado en España. Med Cutan Iber Lat Am 2014; 42 (4-6): 129-132.
- 2. Arenas-Guzmán R, Vega-Memije M, Rangel-Gamboa L. Eumicetoma: actualidades y perspectivas. Gaceta de México. 2017;153(7).
- Fitzpatrick., Goldsmith L. Dermatología en medicina general. 8th ed. Madrid: Ed. Médica Panamericana; 2014.
- 4. Garcia R. Micetoma por Nocardia sp.: reporte del Cusco Perú. Folia dermatol. Peru 2012; 23 (2): 73-79.
- 5. CAPITULO 13: Micetomas y Botriomicosis | PIEL-Latinoamericana / Libreria [Internet]. Piel-l.org. 2020 [cited 17 April 2020]. Available from: https://piel-l. org/libreria/item/243.
- 6. Quereshi Mohame Ali et al. Sonographic presentation and differential diagnosis of mycetoma (Modura foot). Medical Ultrasonography. 2009;11-2:5-9.
- 7. Achenbach R, Negroni R, Liturri M, Khaski S, Bereñak A, Gai L et al. Utilidad de la resonancia magnética nuclear en el diagnóstico de la extensión del micetoma. Arch Argent Dermatol. 2005;55:71-74.
- 8. Maheshwari V, Bhargava S, Jain A, Fatima U, Haq E, Alam K. Histological diagnosis of madura foot (mycetoma): A must for definitive treatment. Journal of Global Infectious Diseases. 2009;1(1):64.
- 9. Edwar Siddig E. Histopathological Approach in Diagnosis of Mycetoma Causative Agents: A Mini Review. Journal of Cytology & Histology. 2017;08(03).
- 10. D. Palacios, J. López, P. Plasencia, D. Ríos, M. Lozano, A. Moya. Micetoma: reporte de casos en el norte peruano. Dermatol Peru 2013; vol 23 (3)163-167.
- 11. Reis, C. M. S., & Reis-Filho, E. G. de M. (2018). Mycetomas: an epidemiological, etiological, clinical, laboratory and therapeutic review. Anais Brasileiros de Dermatologia, 93(1), 8-18. doi:10.1590/abd1806-4841.20187075.
- 12. Gismalla, M.D.A., Ahmed, G.M.A., Mohamed Ali, M.M. et al. Surgical management of eumycetoma: experience from Gezira Mycetoma Center, Sudan. Trop Med Health 47, 6 (2019). https://doi.org/10.1186/s41182-018-0129-2.

Correspondencia: Dr. Oscar Cueva Gutierrez. Email: dr.cuevagutierrez@gmail.com

Recibido: 20-10-2020 Aceptado: 15-11-2020