

Actinomicosi com a causa d'abscessos laterocervicals recidivants

Paula Guzmán-Tena, Ester Parada-Ricart

Servei de Pediatria. Hospital Universitari Joan XXIII de Tarragona. Tarragona

RESUM

Introducció. L'adenitis cervical aguda és relativament freqüent en pediatria. Davant adenitis o abscessos cervicals de repetició o d'evolució tòrpida, cal descartar malformacions congènites (quist branquial, fístula del si piriforme o quist tiroglòs), infeccions per micobacteris i immunodeficiències. Altres causes més infreqüents són la nocardiosi, l'actinomicosi, la toxoplasmosi i els tumors.

Cas clínic. Es presenta el cas d'una nena de 7 anys amb antecedents d'abscessos laterocervicals de repetició (cinc episodis des dels 2 anys) que consulta per nou episodi. Prèviament havia requerit drenatge quirúrgic en quatre ocasions (amigdalectomia i marsupialització de l'abscess en un episodi). Els estudis microbiològics havien mostrat creixement de flora orofaríngia, i els estudis d'imatge no havien objectivat malformacions. En l'episodi actual es realitza drenatge i s'aïlla *Actinomyces odontolyticus* al cultiu anaerobi del material purulent drenat. Completa cinc setmanes d'antibioteràpia endovenosa i sis mesos més amb tractament oral, i presenta una evolució excel·lent.

Comentaris. L'actinomicosi és una malaltia infreqüent causada per bacteris del gènere *Actinomyces*. La forma de presentació més habitual és la d'abscessos cervicals recidivants. L'aïllament del germen no sempre és fàcil perquè requereix condicions específiques per obtenir creixement. La presència de grànuls de sulfur a la histologia pot ajudar al diagnòstic. L'actinomicosi requereix desbridament quirúrgic i/o drenatge i tractament antibiòtic perllongat per tal d'aconseguir la curació definitiva.

Paraules clau: Actinomicosi. Actinomicosi cervicofacial. Limfadenitis. Actinomyces.

ACTINOMYCOSIS COMO CAUSA DE ABSCESES LATEROCERVICALES DE REPETICIÓN

Introducción. La adenitis cervical aguda es relativamente frecuente en pediatría. Ante adenitis o abscesos cervicales de repetición o de evolución tórpida es necesario descartar malformaciones congénitas (quiste branquial, fístula del seno piriforme o quiste tirogloso), infecciones por micobacterias e inmunodeficiencias. Otras causas más infrecuentes son la nocardiosis, la actinomicosis, la toxoplasmosis y los tumores.

Caso clínico. Se presenta el caso de una niña de 7 años con antecedentes de abscesos laterocervicales de repetición (cinco episodios desde los 2 años) que consulta por nuevo episodio. Previamente había requerido drenaje quirúrgico en cuatro ocasiones (amigdalectomía y marsupialización del absceso en un episodio). Los estudios microbiológicos habían mostrado crecimiento de flora orofaríngea y los estudios de imagen no habían objetivado malformaciones. En el episodio actual se realiza drenaje y se aísla *Actinomyces odontolyticus* en el cultivo anaerobio del material purulento drenado. Completa cinco semanas de antibioterapia endovenosa y seis meses más con tratamiento oral, presentando excelente evolución.

Comentarios. La actinomicosis es una enfermedad infrecuente causada por bacterias del género *Actinomyces*. La forma de presentación más habitual es la de abscesos cervicales recidivantes. El aislamiento del germen no siempre es fácil porque requiere condiciones específicas para obtener crecimiento. La presencia de gránulos de sulfuro en la histología puede ayudar al diagnóstico. La actinomicosis requiere desbridamiento quirúrgico y/o drenaje y tratamiento antibiótico prolongado para conseguir la curación definitiva.

Palabras clave: Actinomicosis. Actinomicosis cervicofacial. Linfadenitis. Actinomyces.

ACTINOMYCOSIS AS A CAUSE OF RECURRENT CERVICAL ABSCESES

Introduction. Acute cervical adenitis is quite frequent in paediatrics. In the presence of recurrent or refractory adenitis or cervical abscesses it is necessary to rule-out congenital malformations (branchial cleft cyst, pyriform sinus or thyroglossal cyst), mycobacterial infections and immunodeficiencies. Other less common causes are nocardiosis, actinomycosis, and tumours.

Case report. A 7-year-old girl with history of repeated cervical abscesses (five episodes since she was 2 years old) returned for a new-onset cervical abscess. Previously she required surgical drainage in four occasions (in one episode tonsillectomy and marsupialization was done). Microbiological studies revealed normal oropharyngeal flora, immunological evaluation was normal, and no congenital malformations were detected on imaging studies. In the current episode an anaerobic culture of the drainage grew *Actinomyces odontolyticus*. The patient responded well to 5 weeks of intravenous antibiotic therapy and 6 more months of oral treatment, with full resolution.

Comments. Actinomycosis is an infrequent disease caused by bacteria from *Actinomyces* genera. The more usual presentation is repeated cervical abscesses. The isolation of the bacterium can be

Treball presentat a la XXII Reunió Anual de la Societat Catalana de Pediatria (Tortosa, maig 2016) i guardonat amb el premi al Pòster Més Original.

Correspondència: Paula Guzmán Tena
c/ Ernest Vilches, 1 B, 3r 2a. 43005 Tarragona
paulaguzmanten@gmail.com

Treball rebut: 30.09.2016
Treball acceptat: 21.03.2017

Guzmán-Tena P, Parada-Ricart E.
Actinomicosi com a causa d'abscessos laterocervicals recidivants.
Pediátr Catalana. 2017;77(4):133-5.

difficult as it requires specific anaerobic conditions for growth. The presence of sulfur granules in histology can help with the diagnosis. Actinomycosis requires surgical debridement or drainage and extended antibiotic course for definitive treatment and full recovery.

Key words: Actinomycosis. Cervicofacial actinomycosis. Lymphadenitis. Actinomyces.

Introducció

L'adenitis cervical aguda és una entitat relativament freqüent en pediatria, que en la majoria dels casos es deu a infeccions per virus respiratoris o infeccions bacterianes de l'àrea otorrinolaringològica ¹.

Davant adenitis cròniques o abscessos cervicals de repetició o d'evolució tòrpida cal considerar altres causes no tan habituals, com les malformacions congènites (quist branquial, fístula del si piriforme o quist tiroglòs), infeccions per micobacteris i immunodeficiències. Altres causes més infreqüents que cal tenir en compte són la nocardiosi, l'actinomicosi, la toxoplasmosi i els tumors ².

Cas clínic

Es presenta el cas d'una nena de 7 anys amb antecedents d'abscessos laterocervicals de repetició que consulta per un nou episodi de tumoració laterocervical i febre. No té altres antecedents mèdics d'interès i no consten traumatismes recents en la zona, alteracions dentàries ni contacte amb animals. No rep cap tractament en el moment de la consulta.

Des dels 2 anys havia presentat cinc episodis d'abscessos en la mateixa localització que havien requerit ingrés per a tractament antibiòtic endovenós. En quatre ocasions s'havia realitzat drenatge quirúrgic amb amigdalectomia i, en un dels episodis, marsupialització de l'abscessos. Entre els estudis fets en els ingressos previs, destaquen una ecografia i una tomografia cervical (TC), tant en fase aguda com en fase asimptomàtica, que no evidenciaven malformacions; cultius del material purulent drenat (creixement de flora comensal: *Streptococcus anginosus*, *Peptostreptococcus sp.* i *Eikenella corrodens*); tincions de Ziehl-Neelsen, que no evidenciaven bacils àcid-alcohol resistents; PCR (reacció en cadena de la polimerasa) per detectar *M. tuberculosis* (negativa); estudi immunitari (normal) i PPD (negatiu).

Malgrat l'inici de l'antibioteràpia endovenosa, es produeix progressió de l'abscessos (Fig. 1), per la qual cosa al tercer dia es realitza drenatge amb injecció de contrast i TC que no evidencia trajectes fistulosos (Fig. 2). Es fan serologies del virus d'immunodeficiència humana (VIH), citomegalovirus (CMV), virus Epstein-Barr (VEB) i *Toxoplasma*, que resulten negatives. La citologia del contingut de l'abscessos mostra únicament inflamació aguda i la biòpsia de les vores de l'abscessos mos-



Fig. 1. Evolució de l'abscessos els tres primers dies d'ingrés.



Fig. 2. TC amb injecció de contrast. Mostra cavitat de 27 x 33 x 17 mm que s'inicia a l'alçada de la vora inferior del cartílag tiroïdal, medial a múscul esternocleidomastoïdal i superficial a musculatura infrahioidal. Extensió a pla cutani-subcutani amb protusió, engruiximent cutani i trabeculació del greix. No s'evidencia trajecte fistulós mitjançant aquesta exploració.

tra un granuloma sense signes de malignitat. Es realitza tinció de Ziehl-Neelsen, PCR *M. tuberculosis* i cultiu específic per micobacteris, que resulten negatius. Finalment és en el cultiu convencional on s'objectiva creixement d'*Actinomyces odontolyticus*, *Eikenella corrodens* i *Streptococcus mitis/oralis*.

La pacient es diagnostica d'actinomicosi cervical i és donada d'alta en règim d'hospitalització a domicili; va completar cinc setmanes d'antibioteràpia endovenosa amb penicil·lina G sòdica 250.000 UI/kg/dia, i posteriorment sis mesos d'antibioteràpia via oral amb amoxicil·lina 50 mg/kg/dia. La pacient va presentar una evolució satisfactòria.

Discussió

L'actinomicosi cervical és una malaltia infreqüent causada per bacteris del gènere *Actinomyces*. En infants, els factors predisposants són traumatismes, càries dental, diabetis *mellitus* mal controlada, mossegada humana, ús de corticoides, immunodeficiències congèni-

tes i infecció per VIH. Els bacteris formen part de la flora endògena de mucoses i poden penetrar a l'organisme a partir de traumatismes o cirurgia. S'estenen per continuïtat sense respectar teixits i generen un procés inflamatori crònic supuratiu i cicatritzant. L'espècie predominant aïllada en humans és l'*Actinomyces israelii*, tot i que també poden aparèixer *A. turicensis* i *A. odontolyticus*, formant part d'una infecció polimicrobiana. Són bacteris grampositius no àcid-alcohol resistents, anaerobis estrictes o facultatius³⁻⁴.

L'actinomicosi cervical és la forma més freqüent de presentació. Se sol presentar com una massa indolora de creixement lent que pot provocar fístules cutànies, o de forma menys freqüent, com a abscess laterocervical que pot drenar a l'exterior i mostrar els característics grànuls de sofre. Altres formes de presentació són la pulmonar, l'abdominal i la pelviana. Les complicacions es produeixen per afectació d'estructures veïnes o per disseminació hematògena^{3,5-6}.

El diagnòstic de certesa es fa a partir de l'aïllament del bacteri en mostres de material purulent o teixits afectats, cosa que no sempre s'aconsegueix. És molt important processar correctament la mostra, mantenint condicions anaeròbies, i indicar al laboratori la sospita diagnòstica⁶. El creixement d'*Actinomyces* en el cultiu té lloc al cap de 2-5 dies, tot i que es pot retardar fins a 2-4 setmanes. En les tincions de Gram, de plata metenamina o de Giemsa es poden observar els típics grànuls de sofre envoltats de bacteris filamentosos ramificats³⁻⁴.

El diagnòstic diferencial s'ha de fer amb altres entitats causants d'abscessos laterocervicals. Els defectes congènits de la línia mitjana (quist tiroglòs, fístula del si piriforme, quist branquial) provoquen quists, sinus i fístules que es poden sobreinfectar i drenar material purulent a l'exterior⁷. El diagnòstic es fa mitjançant proves d'imatge.

En el conjunt de les infeccions que poden provocar adenitis crònica unilateral hi ha les infeccions per micobacteris no tuberculosos i la malaltia per esgarrapada de gat, seguides de toxoplasmosi, tuberculosi i nocardiosi. Entre les infeccions que poden causar adenitis crònica bilateral hi ha les infeccions per VEB i CMV, la infecció per VIH, la toxoplasmosi i la tuberculosi⁸.

Els tumors són causa infreqüent d'adenitis crònica, i es manifesten habitualment com a masses sòlides cervicals.

Les immunodeficiències primàries amb alteració de la fagocitosi es poden manifestar com abscessos recidivants. El dèficit d'adhesió leucocitària provoca infeccions bacterianes recidivants i cròniques a la pell, l'aparell digestiu, el tracte gastrointestinal i la mucosa genital. La malaltia granulomatosa crònica cursa amb pneumònia recidivant, limfadenitis, abscessos cutanis profunds i osteomielitis. La síndrome d'hiper-IgE causa

abscessos cutanis recorrents, candidiasi mucocutània, pneumònies de repetició i altres manifestacions, com ara fractures, retard en la caiguda de la dentició primària, hiperextensibilitat i escoliosi. El diagnòstic d'aquest tipus d'immunodeficiència es fa per citometria de flux⁹.

El tractament de l'actinomicosi requereix desbridament quirúrgic o extirpació de la lesió i antibioteràpia prolongada amb penicil·lines o derivats. El tractament d'elecció és penicil·lina G sòdica endovenosa 250.000 UI/kg/dia (màxim 18-24 milions UI al dia) durant 4-6 setmanes, seguida de tractament oral amb penicil·lina V o amoxicil·lina a 50 mg/kg/dia durant 3-6 mesos (alguns autors recomanen completar 12 mesos). Com a alternatives a la penicil·lina G es poden utilitzar tetraciclina, clindamicina o carbapenems. Si es fa un tractament correcte, la taxa de curació és del 90%, tot i que hi pot haver recaigudes, i per això s'ha de fer un seguiment perllongat del pacient després de finalitzar el tractament^{3-4,6}. Es recomana que aquest seguiment duri entre un i cinc anys¹⁰.

Concloent, davant pacients amb adenitis crònica o abscessos recidivants, s'ha de considerar com a diagnòstic diferencial l'actinomicosi cervical, malgrat que és una entitat poc freqüent en pediatria. Requereix una sospita diagnòstica elevada per tal de processar correctament les mostres i poder obtenir aïllament del germen causal.

Bibliografia

1. Asociación Española de Pediatría. Protocolos diagnóstico-terapéuticos de la AEP: Infectología Pediátrica. Adenitis cervical. 2011. Accessible a la xarxa [data de consulta: 21-07-2016]. Disponible a: <http://www.aeped.es/sites/default/files/documentos/adenitis.pdf>.
2. Beléndez C, Pérez-Moreno J, Saavedra J. Adenomegalias. Adenitis cervical. An Pediatr Contin. 2012;10(6):313-23.
3. Jacobs RF, Schutze GE. Actinomyces. A: Jacobs RF, Schutze GE, ed. Nelson. Tratado de pediatría. Barcelona: Elsevier España SL; 2013. p. 1821-3.
4. Whitworth S, Jacobs RF. Actinomycosis. A: Chinen J, Kline MW, Shearer WT, ed. Feigin and Cherry's Textbook of Pediatric Infectious Diseases. Filadèlfia: Elsevier Saunders; 2014. p. 1820-4.
5. Wong VK, Turmezei TD, Weston WC. Actinomycosis. BMJ. 2011;343:d6099 Accessible a la xarxa [data de consulta: 20-01-2016]. Disponible a: <http://www.bmj.com/content/343/bmj.d6099>.
6. Sharkawy AA, Chow AW. Cervicofacial actinomycosis. 2015. Accessible a la xarxa [data de consulta: 21-05-2015]. Disponible a: <http://www.uptodate.com/contents/cervicofacial-actinomycosis>.
7. Asociación Española de Pediatría. Protocolos diagnóstico-terapéuticos de la AEP: Dermatología Pediátrica. Defectos de la línea media. 2007. Accessible a la xarxa [data de consulta: 21-07-2016]. Disponible a: https://www.aeped.es/sites/default/files/documentos/linea_media.pdf.
8. Healy CM. Cervical lymphadenitis in children: diagnostic approach and initial management. 2016. Accessible a la xarxa [data de consulta: 21-05-2016]. Disponible a: <http://www.uptodate.com/contents/cervical-lymphadenitis-in-children-diagnostic-approach-and-initial-management>.
9. Chinen J, Kline MW, Shearer WT. Primary Immunodeficiencies. A: Chinen J, Kline MW, Shearer WT, ed. Feigin and Cherry's Textbook of Pediatric Infectious Diseases. Filadèlfia: Elsevier Saunders; 2014. p. 903-20.
10. Aguirrebengoa K, Romaña M, López L, Martín J, Montejo M, González de Zárate P. Actinomycosis orocervical. Presentación de 5 casos. Enferm Infecc Microbiol Clin. 2002;20(2):53-6.