

Actinomicosis apendicular como causa de masa ileocecal en la edad pediátrica: Caso clínico

M. Fernández Castilla¹, A. Salazar Villacorta², A. Martín Nalda², J. C. Ferreres Piñas³, A. Coma Muñoz⁴, G. Guillén Burrieza¹

¹Servicio de Cirugía Pediátrica; ²Servicio de Pediatría, Unidad de Patología Infecciosa e Inmunodeficiencias Pediátricas; ³Servicio de Anatomía Patológica; ⁴Servicio de Radiología. Área Materno-Infantil. Hospital Universitario Vall d'Hebron. Barcelona.

RESUMEN

Introducción. La actinomicosis apendicular es una patología rara producida por la invasión del apéndice cecal por bacterias del género *Actinomyces* al alterarse la barrera mucosa después de una causa predisponente, como podría ser una apendicitis aguda. Se presenta con mayor frecuencia en adultos, aunque en la literatura se han descrito algunos casos en edad pediátrica. En este artículo se presenta un nuevo caso pediátrico de actinomicosis apendicular de presentación atípica y se revisa la literatura al respecto.

Caso clínico. Paciente varón de 10 años de edad derivado a nuestro hospital por el hallazgo intraoperatorio en otro centro de una tumoración en flanco derecho, sin identificación del apéndice cecal. Tras completar el estudio con pruebas de imagen, el paciente fue reintervenido bajo la orientación diagnóstica de apendicitis aguda complicada. Intraoperatoriamente, se identifica un plastrón organizado y con escasos signos inflamatorios agudos. La evolución postquirúrgica fue favorable con tratamiento antibiótico convencional. El estudio anatomopatológico de la pieza reveló una actinomicosis apendicular, por lo que se amplió el tratamiento antibiótico de forma ambulatoria y se descartó patología predisponente.

Comentarios. La actinomicosis apendicular es una causa infrecuente de apendicitis que puede simular una tumoración intraabdominal en niños y adultos. Es necesario descartar patología predisponente y realizar un tratamiento antibiótico adecuado.

PALABRAS CLAVE: Actinomicosis; Apendicitis; Tumoración abdominal; Niños.

APPENDICULAR ACTINOMYCOSIS AS A CAUSE OF ILEOCECAL MASS IN CHILDREN: CASE REPORT

ABSTRACT

Introduction. Appendicular actinomyces is a rare disease produced by cecal appendix invasion by *Actinomyces* genus bacteria after a predisposing cause that disrupts mucosal barrier, such as acute appendicitis. The highest frequency appears in adults; however, there are

Correspondencia: Dra. Mireia Fernández Castilla.
Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Vall d'Hebron.
Pg. de la Vall d'Hebron, 119-129. 08035 Barcelona
E-mail: mireia.fernandez@vhebron.net

Recibido: Enero 2016

Aceptado: Febrero 2016

cases in paediatric age described in literature. The aim of this article is to introduce a case of appendicular actinomyces in a child with atypical presentation and to review the literature.

Clinical case. 10-year-old boy transferred to our hospital due to intraoperative finding at a different centre of a right flank tumor, without identification of cecal appendix. After completing the study with image tests, the patient was re-intervened with the diagnosis of complicated acute appendicitis. Intraoperatively, an organized plastron lacking of acute inflammatory signs was found. Post-surgical evolution was positive with conventional antibiotic treatment. Histological study of the specimen revealed an appendicular actinomyces, so antibiotic treatment was widened in an outpatient basis and predisposing diseases were ruled out.

Comments. Appendicular actinomyces is an infrequent cause of appendicitis that can simulate an intra-abdominal tumor in children and adults. It is necessary to rule out predisposing diseases and to administer an adequate antibiotic treatment.

KEY WORDS: Actinomyces; Appendicitis; Abdominal tumor; Child.

INTRODUCCIÓN

La actinomicosis es una patología infecciosa producida por bacilos Gram positivos del género *Actinomyces* que forman parte de la flora comensal de las mucosas del ser humano. La disrupción de la barrera mucosa puede producir la afectación de diferentes órganos, siendo los cuadros clínicos más frecuentes la actinomicosis cérvico-facial, la genitourinaria y la abdominal⁽¹⁾. Dentro de la actinomicosis abdominal, lo más frecuente es la afectación de la región íleo-cecal⁽²⁾ secundaria a cirugías o a procesos inflamatorios previos.

Es necesario, sobre todo en el adulto, establecer un diagnóstico diferencial con procesos neoplásicos malignos⁽³⁾. Para ello, son muy útiles los estudios de imagen, aunque el diagnóstico definitivo vendrá dado por el estudio anatomopatológico del tejido^(4,5). En pocos casos se obtiene un cultivo positivo para *Actinomyces* spp., ya que el bajo índice de sospecha inicial conlleva al procesamiento inadecuado de las muestras⁽¹⁾, de lo que se deduce que la incidencia real de actinomicosis apendicular está infraestimada.

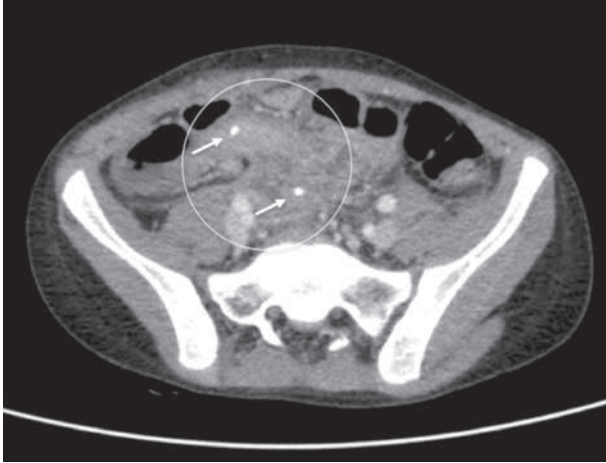


Figura 1. Corte transversal de TC abdominal. Se observa apéndice de gran tamaño (círculo) con dos apendicolitos en su interior (flechas).

Aunque la forma de presentación más frecuente es en adultos de mediana edad^(6,7), se han descrito algunos casos de actinomicosis apendicular en edad infantil. A continuación, presentamos el caso de un niño de 10 años de edad con actinomicosis apendicular con presentación en forma de masa intraabdominal.

CASO CLÍNICO

Paciente varón de 10 años de edad originario de Rumanía y sin otros antecedentes de interés, que presenta cuadro de 4 días de evolución consistente en dolor abdominal de tipo cólico localizado en fosa ilíaca derecha y fiebre termometrada de hasta 38°C. Acude al Servicio de Urgencias de su hospital de referencia, destacando, a la exploración física, dolor a la palpación abdominal en fosa ilíaca derecha con signos de irritación peritoneal. Se realiza analítica sanguínea que evidencia leucocitosis ($17,24 \times 10^9/L$) con neutrofilia ($13,10 \times 10^9/L$) y elevación de la proteína C reactiva (PCR) (11,74 mg/dL).

Ante la orientación diagnóstica de apendicitis aguda, se decide, en su centro de origen, una intervención quirúrgica urgente. Se realiza laparotomía mediante incisión de Rocky-Davis, hallando una gran masa localizada a nivel de flanco derecho, de consistencia dura, que no permite movilizar el ciego por encontrarse firmemente adherido a esta. Se toma muestra de líquido peritoneal para citología, que evidencia células inflamatorias de diversa índole. Ante dichos hallazgos, compatibles con la presencia de una tumoración sólida, se decide no realizar más procedimientos sobre el paciente y se deriva a nuestro centro para valoración.

A su llegada al Servicio de Urgencias de nuestro centro, el paciente se encuentra clínicamente estable. Se realiza analítica sanguínea que evidencia elevación de los parámetros anteriormente citados (leucocitos: $25,81 \times 10^9/L$, neutrófilos: $21,70 \times 10^9/L$, PCR: 16,58 mg/dL) y ecografía abdominal,



Figura 2. A) Imagen intraoperatoria mostrando ciego y apéndice cecal muy aumentado de tamaño y con signos inflamatorios crónicos. B) Pieza de apendicectomía (15 x 2 cm).

que objetiva un apéndice cecal de gran tamaño (16 mm de diámetro –considerándose normal un diámetro ≤ 5 mm–) con la presencia de un apendicolito en su interior, adenopatías locorregionales y líquido libre intraabdominal. Dados los antecedentes, se decide completar el estudio mediante la realización de un TC abdominal con contraste, que confirma los hallazgos mencionados y descarta, en principio, la presencia de una tumoración (Fig. 1).

Ante estos hallazgos, se reinterviene quirúrgicamente al paciente mediante laparotomía iterativa, hallando un plastrón firmemente adherido y con escasos signos inflamatorios agudos (llama la atención la ausencia de líquido libre o pus) que engloba fleon terminal, ciego y sigma. Se localiza y libera el

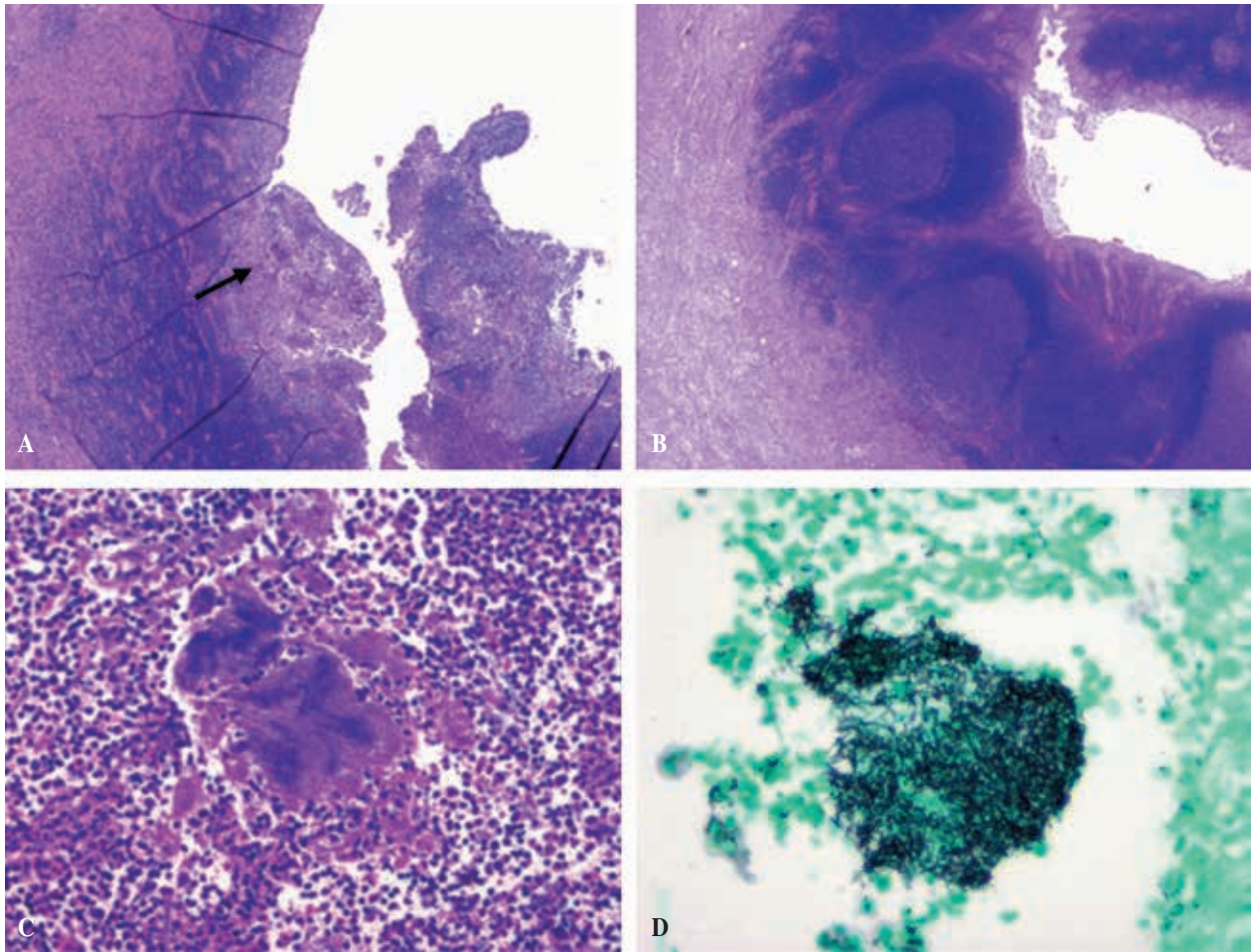


Figura 3. A) Secciones transversales de la pieza de apendicectomía después del procesamiento histológico (tinción hematoxilina-eosina). Se observan colonias de *Actinomyces* spp. cercanas a la luz apendicular (flecha), en un área donde se ha perdido el revestimiento mucoso. B) Destaca marcada hiperplasia linfoide con centros germinales prominentes en mucosa y submucosa apendicular. C) Colonia de *Actinomyces* spp. con la típica apariencia fúngica. D) La tinción con plata metenamina permite evidenciar bacilos de aspecto filamentosos.

apéndice, muy aumentado de tamaño (15 x 2 cm), gangrenoso y perforado en el extremo distal. Se secciona la base mediante sutura mecánica y se completa la apendicectomía de forma reglada (Fig. 2). Se remite la pieza al Servicio de Anatomía Patológica junto con dos adenopatías locorregionales ante la posibilidad de que se trate de un tumor carcinoide (por el gran tamaño del apéndice y las llamativas adherencias en ausencia de signos inflamatorios agudos). El postoperatorio inmediato transcurre sin incidencias, bajo tratamiento antibiótico endovenoso con cefoxitina a dosis de 40 mg/kg cada 6 horas durante 5 días (según el protocolo de apendicitis aguda complicada de nuestro centro), dando de alta al paciente al 5º día postoperatorio.

Al 8º día postoperatorio, el diagnóstico anatomopatológico fue de apendicitis gangrenosa aplastronada, con áreas de abscesificación y presencia ocasional de granulomas en la pared y los centros germinales de los folículos linfoides, observando, en la luz apendicular, la presencia de colonias bacterianas filamentosas compatibles con *Actinomyces* spp.

(Fig. 3). Encontrándose el paciente asintomático y en su domicilio, y de acuerdo con las recomendaciones actuales, se inicia tratamiento antibiótico vía oral con amoxicilina a dosis de 50 mg/kg/día durante 3 meses y se realiza estudio de inmunodeficiencias primarias (enfermedad granulomatosa crónica, principalmente), sin evidenciar patología de base. El paciente completó el tratamiento sin incidencias, permaneciendo asintomático hasta el momento actual.

COMENTARIOS

La actinomycosis es una patología infecciosa rara, por lo que es difícil hallar datos sobre su incidencia en la población. Artículos recientes, refieren una incidencia de 0,3-1 episodios al año por cada 100.000 habitantes en nuestro medio⁽⁸⁾. Se presenta más frecuentemente en adultos entre la tercera y quinta década de la vida, siendo poco frecuente en niños.

Está causada por bacterias del género *Actinomyces*, bacilos Gram positivos filamentosos que conviven de forma comensal en la flora orofaríngea, gastrointestinal y urinaria del ser humano⁽¹⁾. *Actinomyces israelii* es la especie más frecuentemente aislada en infecciones que afectan a los humanos, responsable del 90% de los casos⁽⁶⁾. Dado su bajo potencial patógeno, se necesita una causa predisponente para producir la infección, como podría ser la disrupción de la barrera mucosa, la presencia de un cuerpo extraño o la alteración de la respuesta inmunitaria (como, por ejemplo, en caso de tratamiento esteroideo, antineoplásico, de infección por VIH o de la enfermedad granulomatosa crónica)⁽⁸⁾.

La actinomicosis cérvico-facial es la forma más frecuente de presentación, seguida de la forma genitourinaria^(1,9). Se han descrito casos de infección por *Actinomyces* spp. en todos los órganos del aparato digestivo (representando el 20% de todas las actinomicosis), siendo el apéndice, el ciego y el colon los lugares más frecuentes de afectación^(2,7,10).

Se reseñan como causas predisponentes la cirugía previa, la apendicitis aguda o la diverticulitis, pudiendo aparecer la clínica de semanas a años después⁽¹⁾. El cuadro clínico típico consiste en la aparición de dolor abdominal junto con una masa palpable, formándose una zona extensa e indurada de granulación compuesta por fibroblastos y colágeno, que puede llegar a crear abscesos, fístulas e invasión de estructuras vecinas⁽¹¹⁾. En estos casos, debe descartarse la presencia de un proceso tumoral maligno en esta región⁽³⁾ mediante la realización de exploraciones de imagen complementarias.

Los estudios de imagen pueden ayudar a establecer el diagnóstico diferencial y a descartar procesos tumorales malignos, especialmente en casos de afectación abdominal. Se ha sugerido el valor del TC como exploración diagnóstica que permite descartar la presencia de procesos tumorales, así como para determinar el grado de afectación dentro de la cavidad abdominal⁽¹²⁾. En las formas intestinales, la TC evidencia engrosamiento mural junto con la presencia de una masa sólida o quística en la vecindad del segmento afecto que realiza tras la administración de contraste⁽¹³⁾. A diferencia de los procesos neoplásicos, no suelen encontrarse adenopatías regionales. En caso de afectación apendicular, los hallazgos radiológicos son similares a los de la apendicitis aguda, aunque la mayor presencia de fibrina disminuye los signos inflamatorios agudos, lo que la hace susceptible de confundirse con un proceso tumoral maligno.

Debe tenerse en cuenta que, en niños, a diferencia de en los adultos y según el criterio ALARA, se utilizará la técnica de imagen que consiga mayor rendimiento diagnóstico con la menor radiación posible, siendo la ecografía la técnica de elección en el estudio de la patología apendicular⁽¹⁴⁾. El algoritmo actualmente aceptado para la evaluación de la patología apendicular incluye la combinación de ecografía y TC. La importancia de disminuir la dosis de radiación en niños hace que la RM sea una exploración de imagen alternativa útil en casos seleccionados⁽¹⁵⁾.

El diagnóstico microbiológico se confirma con la identificación de *Actinomyces* spp. en muestras orgánicas teóricamente estériles. No obstante, esto no se produce en la mayor parte de los casos, ya que las condiciones necesarias para el crecimiento de esta bacteria hacen que los cultivos acaben siendo negativos. Además, como ya se ha mencionado, las bacterias del género *Actinomyces* forman parte de la flora comensal de las mucosas del ser humano, por lo que su aislamiento sin acompañarse de clínica o confirmación anatomopatológica carece de significación⁽¹⁾.

El diagnóstico definitivo de actinomicosis se establece con el estudio anatomopatológico del tejido afecto^(4,5). La tinción con hematoxilina-eosina y la visualización al microscopio óptico evidenciarán la presencia de patógenos filamentosos con apariencia fúngica, positivos con las tinciones de Gram, PAS y plata metenamina, y los típicos gránulos sulfurosos, consistentes en agregados bacterianos que condicionan una infección granulomatosa crónica⁽¹⁾.

Las bacterias del género *Actinomyces* son extremadamente sensibles a los antibióticos beta-lactámicos, especialmente a la penicilina G y a la amoxicilina⁽¹⁾. El tratamiento de elección, una vez establecido el diagnóstico, consiste en penicilina G o amoxicilina a altas dosis y de forma prolongada por vía oral⁽⁴⁾. La cirugía se reserva para casos complicados, como la afectación tisular amplia o la aparición de fístulas⁽¹⁾. En cuanto a la actinomicosis intraabdominal, en muy pocos casos se llega al diagnóstico definitivo preoperatoriamente, lo que hace necesaria la cirugía para el estudio anatomopatológico de la pieza⁽¹⁶⁾.

Como conclusión, destacar que, a pesar de su rareza en la edad pediátrica, la actinomicosis apendicular debe formar parte del diagnóstico diferencial ante el hallazgo de una masa intraabdominal en el contexto de un cuadro infeccioso. Una vez diagnosticada, debe completarse un tratamiento antibiótico adecuado y realizar un estudio que descarte la presencia de una inmunodeficiencia de base.

BIBLIOGRAFÍA

1. Valour F, Sénéchal A, Dupieux C, Karsenty J, Lustig S, Breton P, et al. Actinomycosis: etiology, clinical features, diagnosis, treatment, and management. *Infect Drug Resist.* 2014; 7: 183-97.
2. Lee SY, Kwon HJ, Cho JH, Oh JY, Nam KJ, Lee JH, et al. Actinomycosis of the appendix mimicking appendiceal tumor: a case report. *World J Gastroenterol.* 2010; 16: 395-7.
3. Filippou D, Psimitis I, Zizi D, Rizos S. A rare case of ascending colon actinomycosis mimicking cancer. *BMC Gastroenterol.* 2005; 5: 1.
4. Nissotakis C, Sakorafas GH, Koureta T, Revelos K, Kassaras G, Peros G. Actinomycosis of the appendix: diagnostic and therapeutic considerations. *Int J Infect Dis.* 2008; 12: 562-4.
5. Zamani F, Sohrabi M. Clinical, endoscopic, and histopathological aspects of sigmoid actinomycosis; a case report and literature review. *Middle East J Dig Dis.* 2015; 7: 41-4.
6. 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: 2050-2.

7. Yigiter M, Kiyici H, Arda IS, Hiçsönmez A. Actinomycosis: a differential diagnosis for appendicitis. A case report and review of the literature. *J Pediatr Surg.* 2007; 42: 23-6.
8. Herrero J, Gómez J, García E, Hernández A. Actinomycosis. *Medicine.* 2014; 11: 3419-25.
9. Galata CL, Vogelmann R, Gaiser T, Post S, Horisberger K. Abdominopelvic actinomycosis in three different locations with invasion of the abdominal wall and ureteric obstruction: an uncommon presentation. *Int J Surg Case Rep.* 2015; 12: 48-51.
10. Karateke F, Özyazici S, Menekse E, Das K, Ozdogan M. Unusual presentations of actinomycosis; anterior abdominal wall and appendix: report of three cases. *Balkan Med J.* 2013; 30: 315-7.
11. Akbulut S, Yagmur Y, Gumus S, Sogutcu N, Demircan F. Actinomyces-induced inflammatory myofibroblastic tumor of the colon: A rare cause of an abdominal mass. *Int J Surg Case Rep.* 2015; 9: 15-8.
12. Cabrejos K, Pascual J, Alfayate S, Trujillo A. Actinomycosis: a propósito de 2 casos clínicos. *An Pediatr.* 2012; 77: 424-5.
13. Heo SH, Shin SS, Kim JW, Lim HS, Seon HJ, Jung S-I, et al. Imaging of actinomycosis in various organs: a comprehensive review. *Radiographics.* 2014; 34: 19-33.
14. Binkovitz L, Unsdorfer K, Thapa P, Kolbe A, Hull N, Zingula S, et al. Pediatric appendiceal ultrasound: accuracy, determinacy and clinical outcomes. *Pediatr Radiol.* 2015; 45: 1934-44.
15. Koning J, Naheedy J, Kruk P. Diagnostic performance of contrast-enhanced MR for acute appendicitis and alternative causes of abdominal pain in children. *Pediatr Radiol.* 2014; 44: 948-55.
16. Navarre P, Cantin M, Isler M. Para-iliac actinomycetoma presenting as a sarcoma, a late complication of appendicitis: A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2014; 5: 43-6.