

Botriomicosis cutánea. Un caso infantil y uno adulto

Botriomycosis: A paediatric and an adult case

Elisa Cubilla*, Antonio Guzmán*, Adriana González*, Gloria Mendoza*, Gustavo Aguilar*, Ma. Teresa García Romero**, Roberto Arenas**

* Servicio y posgrado de dermatología, Hospital Central del Instituto de Previsión Social y Universidad Católica de Asunción, Asunción, Paraguay

** Hospital General "Dr. Manuel Gea González", D.F., México

Fecha de aceptación: abril 2010

RESUMEN

La botriomicosis es una infección causada por bacterias, sobre todo *Staphylococcus aureus*, que se agrupan en granos. Puede ser cutánea y manifestarse como nódulos, abscesos y fístulas, o visceral; es de evolución crónica y recurrente. El tratamiento se basa en antibióticos por periodos prolongados. Presentamos dos casos, un niño varón y una mujer adulta, sólo uno con factores predisponentes, ambos por *S. aureus* y buena respuesta al tratamiento.

PALABRAS CLAVE: botriomicosis, infección granulomatosa, granos, pseudomicosis bacteriana

ABSTRACT

Botryomycosis is a bacterial infection and *Staphylococcus aureus* is its most common etiological agent. It can involve cutaneous or internal organs with nodules, abscesses or fistulae, with a chronic, recurring course and a typical poor response to treatment even with prolonged antibiotic courses. We report 2 cases caused by *S. aureus* in a 38 year-old female and in a 13 year-old boy; both with excellent response to treatment.

KEYWORDS: botryomycosis, granulomatous infection, grains, bacterial pseudomycosis

Introducción

La botriomicosis es una reacción granulomatosa supurativa, secundaria a una infección bacteriana, en la que los microorganismos forman gránulos o granos compuestos de masas bacterianas agrupadas, que puede comprometer piel y vísceras.¹ El microorganismo más común es *Staphylococcus aureus*.^{1,2,3,4} La evolución es crónica, asintomática y muchas veces recurrente. Son pocos los casos reportados en la bibliografía; en este artículo describimos a dos pacientes de Asunción, Paraguay.

Casos clínicos

Caso 1. Paciente masculino de 13 años de edad que acudió a consulta por dermatosis en planta de pie izquierdo, caracterizada por tumefacción, eritema y fístulas con exudado purulento; dolorosa, de crecimiento progresivo, de 8 meses de evolución, con incapacidad funcional se-

cundaria (fotografía 1). Refería como antecedente traumatismo con una piedra, y presentaba además desnutrición calórica-proteica importante.

Se tomó biopsia con sacabocados (*punch*) y muestra para cultivo. Se realizó examen directo micológico, que mostró un grano blanco-amarillento, y tinción de Gram, donde se observaron microorganismos positivos (fotografía 2). El estudio histopatológico mostró infiltrado inflamatorio crónico y células gigantes multinucleadas que fagocitaban colonias bacterianas agrupadas en granos (fotografía 3). En el cultivo se observaron abundantes colonias de *Staphylococcus aureus* (fotografía 4) sensible a rifampicina, doxiciclina, gentamicina, eritromicina y TMP-SMX.

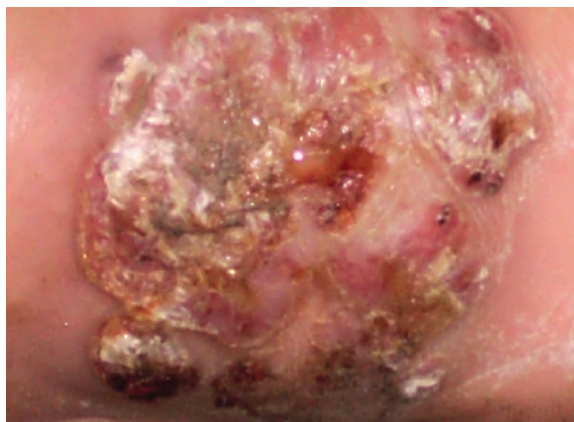
Se inició tratamiento con trimetoprim/sulfametoxazol, 160/800 mg cada 12 horas, con buena respuesta clínica. Tres meses después se encontraba sin lesiones y con mejoría en su estado nutricional (fotografía 5).

CORRESPONDENCIA

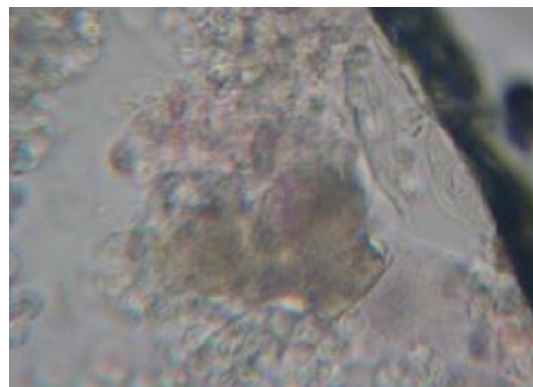
Dra. Elisa Cubilla ■ angufa54@hotmail.com

Dermaclínica, 25 de mayo 1344, entre Curupayty y Paí Pérez, Distrito San Roque, Asunción-Paraguay.

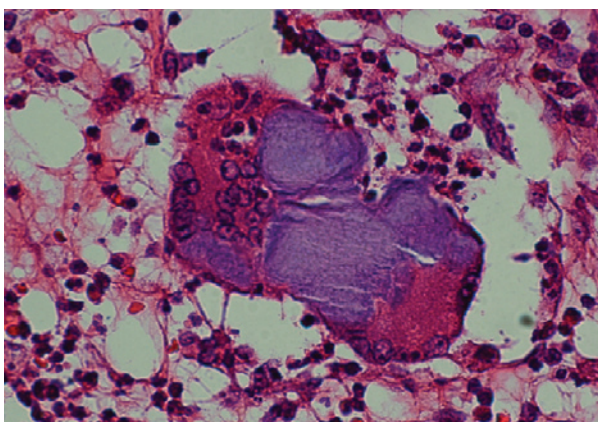
Teléfono: (595-21) 225-315; (595-21) 206-287; (595-21) 206-369. Fax: (595-21) 208-587.



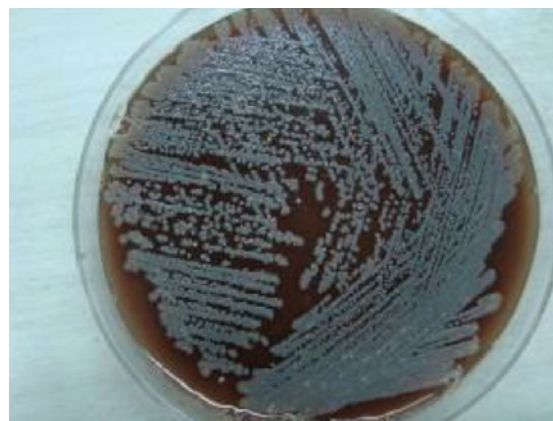
Fotografía 1. Dermatitis caracterizada por tumefacción, eritema y fístulas con exudado purulento.



Fotografía 2. Examen directo con lugol en que se observa el grano.



Fotografía 3. Biopsia que muestra infiltrado inflamatorio granulomatoso con formación de granos ambófilos.



Fotografía 4. Cultivo de *S. aureus*.

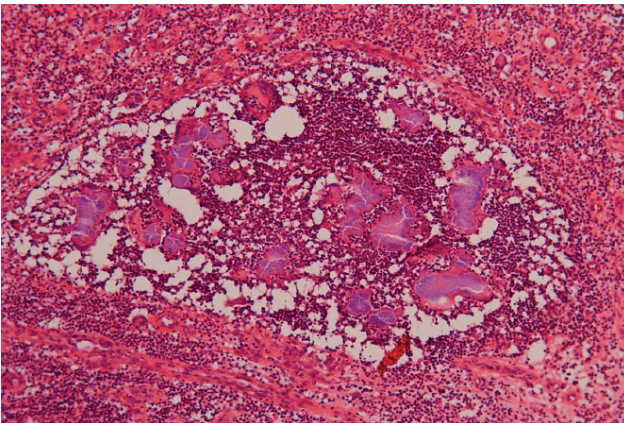


Fotografía 5. Caso 1, mejoría después del tratamiento.

Caso 2. Paciente femenino de 38 años de edad, sin antecedentes patológicos de importancia. Presentaba en región periumbilical, lado izquierdo, tres lesiones de aspecto nodular tumefactas, eritematosas brillantes y pruriginosas, de 1 año de evolución (fotografía 6). Había recibido tratamientos antibióticos en otros centros sin mejoría. El examen directo mostró acúmulos bacterianos en forma de granos, constituidos por bacterias positivas a Gram. En el cultivo se aislaron colonias de *Staphylococcus aureus* con antibiograma sensible a gentamicina, ciprofloxacina, rifampicina y penicilina. El estudio histopatológico reportó infiltrado inflamatorio crónico y neutrófilos que fagocitaban colonias bacterianas con granos (fotografía 7). En los exámenes de laboratorio, la biometría hemática reveló leucocitosis a expensas de neutrofilia ligera. Se inició tratamiento con cefalexina, 2 gr/día, con el diagnóstico presuntivo de botriomicosis, sin respuesta alguna a los 15 días. Después se prescribió ciprofloxacina, 1 gr/día, lo que disminuyó la sintomatología y el tamaño de la lesión.



Fotografía 6. Nódulos tumefactos eritematosos en región periumbilical.



Fotografía 7. Biopsia que muestra infiltrado granulomatoso supurativo con múltiples granos ambófilos en el centro.

Discusión

Bollinger reportó el primer caso de botriomicosis en 1870, en un caballo que, tras su castración, presentó lesiones granulomatosas con múltiples abscesos que drenaban gránulos, los cuales se aislaron de tejidos y pus.¹

En 1884, Rivolta propuso el término “botriomicosis”, derivado del griego *botrys* (racimo de uvas), por las características de agrupación de los gránulos, y *mycosis*, en alusión a una supuesta etiología fúngica;¹ luego se supo que se debía a una bacteria.

Los primeros casos en humanos se informaron en 1913, por Ligniers, Spitz, Archibald y Opie. Y el primero en proponer un origen bacteriano fue Magrou (1914-1919),¹ quien concluyó que el agente causal era *Staphylococcus aureus*.

La revisión de mayor comprensión y clasificación de esta enfermedad la hizo Winslow, quien dividió la botriomicosis en cutánea y visceral.¹ Hasta el momento hay más o menos 130 casos en el mundo.¹⁵

El término “botriomicosis” no es correcto, porque el origen es bacteriano y no hay etiología fúngica, pero es el más común en la bibliografía. Otras denominaciones son actinofitosis estafilocócica, bacteriosis granular, pseudomicosis bacteriana y actinobacilosis.¹⁴ Asimismo, se han utilizado los términos “botriomicoma” o “granuloma piogénico”, pero son entidades por completo diferentes.¹

La causa más frecuente de botriomicosis es *Staphylococcus aureus* (40%),^{1,4} a la cual sigue *Pseudomonas aeruginosa* (20%).^{1,6,7} Otros agentes son estafilococo coagulasa negativo, *Micrococcus pyogenes*, *Streptococcus sp*, *Escherichia coli*, *Proteus sp*, *Propionibacterium acnes*, *Neisseria sp*, *Peptostreptococcus sp*, *Bacteroides fragilis*, *Serratia marcescens*, *Actinobacillus lignieres*, *Moraxella noliuefaciens*,^{4,8,9} *C. jeikeium*¹⁰ y *Pseudomonas vesicularis*.¹¹ Sin embargo, todos estos son de baja virulencia y ocurren en pacientes hospitalizados con otras comorbilidades. Además, se ha descrito la coexistencia de dos o más especies.^{12,13}

Aún no se conoce bien su patogénesis, pero se proponen varias hipótesis. Una es que los gránulos se forman en concentraciones intermedias de inóculo bacteriano,¹ cuando son altas hay necrosis tisular y cuando son bajas los microorganismos son fagocitados. Para que ocurra botriomicosis se requiere un equilibrio simbiótico delicado entre el número de organismos inoculados y la resistencia tisular alterada del hospedero.⁶ Otros autores proponen la reacción antígeno-anticuerpo, o un equilibrio entre la sustancia secretada por la bacteria y el huésped.^{1,6,14,15}

Algunos casos son secundarios a inoculación traumática de los microorganismos por catéteres intravenosos,¹⁷ aunque la mayoría de las veces los pacientes no recuerdan traumatismos. El periodo de incubación es muy prolongado.

Los casos viscerales son posteriores a cirugía u hospitalización, y los agentes son microorganismos nosocomiales, como *Pseudomonas spp*, o componentes de la flora normal, como *Micrococcus spp*. y *P. acnes*.¹

La inmunidad suele ser normal, aunque se han reportado alteraciones humorales y celulares,^{1,14,16} como SIDA^{17,18} y deficiencia de inmunoglobulina A; además se ha reportado botriomicosis en asociación con síndrome de hiperinmunoglobulina E.¹⁹

Otros factores predisponentes y frecuentes son malnutrición, traumatismos, cuerpos extraños,⁷ complicación postoperatoria, diabetes mellitus,^{1,20,21} trastornos hepáticos,^{22,23} tratamiento con corticoides,^{1,6} alcoholismo,^{20,21}

fibrosis quística,²⁴ mucinosis folicular,²⁵ glomerulonefritis,^{1,6} asma bronquial, strongiloidiasis intestinal,²⁶ infección por herpesvirus, trasplante cardíaco y catéteres intravasculares.^{1,27}

Es una enfermedad de distribución mundial. Se conocen casos en Estados Unidos, España,²⁸ Inglaterra, Francia, Alemania, Sudáfrica, Brasil, Uruguay, México, India, Japón,¹ Perú y Paraguay.

Predomina en edades medias y es más frecuente en varones, con proporción de 3:2;¹³ se han observado casos desde los 8,5 meses hasta los 80 años de edad.¹⁹

La forma cutánea representa 60% de los casos. Se presenta en forma de nódulos, abscesos, úlceras, fistulas con exudado seropurulento y granos o gránulos observables macroscópicamente, pues su diámetro oscila de 3 a 5 milímetros. Algunas veces aparecen como vegetaciones múltiples o lesiones similares a prurigo nodular. Pueden implicar músculo o hueso, para generar periostitis u osteomielitis.^{6,7} Hay casos descritos en cuello, cabeza y abdomen.^{6,7,21,27}

Por lo general el paciente está afebril o con muy pocos síntomas generales. La enfermedad llega a diseminarse en quienes tienen inmunosupresión severa.^{1,29}

La botriomicosis visceral suele ser de origen endógeno, como complicación postoperatoria o por catéteres intravasculares en pacientes de hospitalización prolongada, o en pacientes inmunosuprimidos. Muchos casos se han reportado en pulmón,^{1,24} hígado,¹⁵ riñón, cerebro,¹⁵ cavidad oral, ojos, pericardio y genitales. Una de las mejores revisiones de botriomicosis visceral es la de Katznelson y colaboradores, quienes señalaron fibrosis quística en los pulmones en siete casos.^{1,24} La botriomicosis de la cavidad oral se ha observado en lengua, amígdalas y paladar.⁸

El diagnóstico diferencial es con micetoma,^{1,2} actinomicosis,^{1,30} abscesos,^{6,21} quiste epidermoide,^{1,3} tuberculosis,¹ esporotricosis,^{1,27} Orf,¹ carcinomas, cisticercosis cerebral y sarcomas,³¹ entre otras enfermedades.²⁴

Hay tres pasos para el diagnóstico:

1. Identificar bacterias no filamentosas en gránulos del exudado.
2. Cultivar las bacterias.
3. Reconocer bacterias no filamentosas en gránulos en especímenes de biopsia o autopsia.⁵

Se hace un examen directo de la secreción con solución salina, yodopovidona (lugol) o hidróxido de potasio, donde se observan granos blandos, blanco-amarillentos, de 0,5 a 3 mm de diámetro; puede haber fenómeno de Splendore-Hoepli, con clavos eosinófilos.^{1,3}

El exudado se cultiva en medios para hongos (Sabouraud o Mycosel) para descartar actinomicetos u hongos, y en medios para bacterias, sin antibióticos (agar sangre, tioglicolato). Debe identificarse el microorganismo aislado y probar su susceptibilidad a antibióticos.³

En cuanto a los hallazgos histopatológicos, en la epidermis hay hiperqueratosis y acantosis; en dermis se observan infiltrados inflamatorios con neutrófilos, linfocitos, eosinófilos, células plasmáticas, fibroblastos e histiocitos, y en ocasiones, células gigantes a cuerpo extraño. En el centro del infiltrado se encuentran los granos, que miden alrededor de 1 mm de diámetro y son ambófilos; los cocos son basófilos y se agrupan en pares y tétradas; a veces hay clavos eosinófilos.^{1,6} Los granos presentan cemento positivo a PAS. Cuando se realiza tinción de Gomori-Grocott, se observan granos no filamentosos. La tinción de Gram es positiva o negativa según el microorganismo causal; con Giemsa se tiñen de azul.^{1,3}

El tratamiento se basa en la identificación del agente causal y en su sensibilidad a antibióticos. La terapia empírica falla debido a la multiplicidad de patógenos causantes. Se han utilizado con éxito eritromicina, 500 mg cada 6 horas; minociclina, 100 mg/día; TMP-SMX, de 800 a 160 mg cada 12 horas y en dosis convenientes; dicloxacilina, gentamicina, penicilina benzatínica, cefazolina y cefaclor.^{1,21} La duración debe ser prolongada, por varias semanas. Puede ser útil la escisión quirúrgica combinada con antibioticoterapia prolongada.^{1,27} Se pueden emplear otras técnicas complementarias, como el oxígeno hiperbárico y el láser CO₂.^{1,32}

El pronóstico en casos cutáneos es benigno con tratamiento. En casos viscerales hay 48% de mortalidad.³

Conclusiones

La botriomicosis es una entidad poco frecuente y subdiagnosticada, y debemos recordar considerarla como diagnóstico diferencial de patologías granulomatosas infecciosas de larga evolución, sobre todo en individuos inmunodeprimidos o con otros factores predisponentes,^{1,3,28} y dar un tratamiento adecuado hasta la resolución.

Comunicamos un caso infantil en un varón y otro en una mujer adulta, ambos muy distintos en localización, aspecto clínico y factores predisponentes. Los dos casos manifestaron buena respuesta al tratamiento y fueron causados por el mismo agente etiológico: *Staphylococcus aureus*. Estos paramicetomas son poco frecuentes, por lo que el diagnóstico clínico es difícil; sin embargo, el examen directo y la biopsia fueron claves en el diagnóstico y en la decisión terapéutica.

REFERENCIAS

- Bonifaz A, Carrasco E. "Botryomycosis". *Int J Dermatol* 1996; 35: 381-388.
- Arenas R. *Micología Médica Ilustrada*. México, McGraw-Hill 2008: 292-295
- Arenas R. "Botriomicosis". *Micología Médica Ilustrada*. México, McGraw Hill, 2008, 26: 292-295.
- Rippon JW. "Botryomycosis". En: *Medical Mycology. The pathogenic fungi and the pathogenic actinomycetes*. 3a ed, Philadelphia, Saunders, 1988: 116.
- Neafie RC, Marty AM. "Unusual infections in humans". *Clin Microbiol Rev* 1993; 6 (1): 34-56.
- Hacker P. "Botryomycosis". *Int J Dermatol* 1983; 22: 455-458.
- Findlay GH, Vismar HF. "Botryomycosis: some African cases". *Int J Dermatol* 1990; 29: 340-344.
- Silvaraj S, Muthu Sekhar MR, Baig MF. "Micrococcal botryomycosis of the left temporal region". *Indian J Dent Res* 2007; 18 (3): 131-134.
- Feldman SR, Hill Ch, Petersen MJ. "Botryomycosis caused by *Moraxella noliuefaciens*". *Cutis* 1989; 43: 140-142.
- Jucgla A, Sais G, Carratala J, Moreno A, Fernandez-Sevilla A, Peyri J. "A papular eruption secondary to infection with *Corynebacterium jeikeium* with histopathological features mimicking botryomycosis". *Br J Dermatol* 1995; 133 (5): 801-804.
- Calegari L, Gezeule E, Torres E, Carmona C. "Botryomycosis caused by *Pseudomonas vesicularis*". *Int J Dermatol* 1996; 35: 817-818.
- Prado de Oliveira ZN, Cuce LC, Salebian A. "Botryomycosis". *Med Cutan Ibero Lat Am* 1986; 14: 49-54.
- Simantov A, Chosidow O, Fraitag S y cols. "Disseminated cutaneous botryomycosis, an unexpected diagnosis after 20 years duration". *Clin Exp Dermatol* 1994, 19: 259-261.
- Martín-Pascual A, Pérez AG. "Botryomycosis". *Dermatológica* 1975; 151: 302-309.
- Brunken RC, Lichon-Chao N, Broek HV. "Immunologic abnormalities in botryomycosis. A case report with review of the literature". *J Am Acad Dermatol* 1983, 9: 428-434.
- Bridgeford EC, Fox JG, Nambiar PR, Rogers AB. "Agammaglobulinemia and *S. aureus* botryomycosis in a cohort of related sentinel swiss Webster mice". *J Clin Microbiol* 2008; 46 (5): 1881-1884.
- Weitzner JM, Dhawan SS, Rosen LB, Sparti P, Resnick L. "Successful treatment of botryomycosis in a patient with acquired immunodeficiency syndrome". *J Am Acad Dermatol* 1989; 21 (6): 1312-1314.
- Ahdoot D, Rickman LS, Haghighi P, Heard WU. "Botryomycosis in the acquired immunodeficiency syndrome". *Cutis* 1995; 55 (3): 149-152.
- Bulengo-Ransby SM, Headington JT, Cantu-Gonzalez G, Rasmussen JE. "Staphylococcal botryomycosis and hyperimmunoglobulin E syndrome in an infant". *J Am Acad Dermatol* 1993; 28: 109-11.
- Casals M, Campo A, Garcia F, Carrasco MA, Marco V, Aspiole F, Camps A. "Botriomicosis pseudotumoral". *Med Cutan Ibero Lat Am* 2002; 30: 64-67.
- Mehregan DA, Su WP, Anhalt JP. "Cutaneous botryomycosis". *J Am Acad Dermatol* 1991; 24: 393-396.
- Leibowitz MR, Asvat MS, Kalla AA y cols. "Extensive botryomycosis in a patient with diabetes and chronic active hepatitis". *Arch Dermatol* 1981; 117; 739-742.
- Schlossberg D, Pandey M, Reddy R. "The Splendore-Hoeppli phenomenon in hepatic botryomycosis". *J Clin Pathol* 1998; 51: 399-400.
- Katznellen D, Vawter GF, Foley GE y cols. "Botryomycosis, a complication in cystic fibrosis. Report of 7 cases". *J Pediatric* 1964; 65: 525-539.
- Harman RR, English MP, Halford M, Saihan EM, Greenham LW. "Botryomycosis: A complication of extensive follicular mucinosis". *Br J Dermatol* 1980; 102: 215-222.
- Guerra Amaya O, Solari Zerpa L, Guanira Carranza J y cols. "Botryomycosis y strongyloidosis intestinal en un paciente con HTLV-1: Reporte de un caso". *Rev Med Hered* 2002; 13: 2.
- Moreno-Collado C. "Botriomicosis. Reporte de 7 casos y revisión de la literatura". *Dermatol Rev Mex* 1995; 39: 129-136.
- Ramírez-Santos A, Aguilar-Besnier M, Sánchez Aguilar D y cols. "Botriomicosis cutánea". *Med Cutan Ibero Lat Am* 2008; 36 (1): 23-26.
- Buckley RH, Lucas ZJ, Hattler BG y cols. "Defective cellular immunity associated with chronic mucocutaneous moniliasis and recurrent staphylococcal botryomycosis; immunological reconstitution by allogenic bone marrow transplant". *Clin Exp Immunol* 1968; 3: 153-169.
- Neuhauser EB. "Actinomycosis and botryomycosis". *Postgrad Med* 1970; 48: 59-61.
- Chu WO, Fruauff A, Rivas R, Donovan V. "Cutaneous botryomycosis: MR findings". *ARJ* 1994; 163; 647-648.
- Lefell DJ, Brown MD, Swanson NA. "Laser vaporization: a novel treatment of botryomycosis". *J Dermatol Surg Oncol* 1989, 15: 703-705.