

Micetoma de un pie

Ernesto González Martínez¹, Ibrilio Castillo García², Ernesto Fleites Marrero³, Rafael Sánchez Concepción³, Lázaro Cleto Betancourt³, José A. Rodríguez Triana Orue³

Resumen

Introducción: El micetoma una entidad nosológica de origen infeccioso, crónica, deformante y localizada con mayor frecuencia a nivel de miembros inferiores. Los agentes etiológicos pueden ser hongos verdaderos (eumicetos) o bacterias filamentosas (actinomicetos). **Descripción:** Se presenta un paciente masculino de 52 años, con antecedentes de salud, con aumento de volumen significativo del dorso del pie izquierdo, que presenta múltiples fístulas pequeñas que drenan escaso líquido trasparente y material sólido oscuro como granos de arena. Se le realizaron radiografías simples seriadas durante 14 años del pie izquierdo, biopsia de la tumoración, estudio microbiológico y se impuso tratamiento antifúngico al confirmarse la etiología por *Exophiala jeanselmei*. **Conclusiones:** Micetoma es una entidad nosológica de curso crónico, tratamientos prolongados y costosos. En el presente caso sin factores de riesgo comunes como el trabajo agrícola sin el debido uso de los medios de protección. Las infecciones por actinomicetos se han visto relacionadas con cuadros que determinan déficit de inmunocompetencia.

Palabras clave: micetoma; *Exophiala jeanselmei*

INTRODUCCIÓN

El micetoma, pie de Madura o maduromicosis es una entidad nosológica de origen infeccioso, crónica, deformante y localizada con mayor frecuencia a nivel de miembros inferiores (pies y piernas); otras localizaciones pueden ser: muslo, cadera, mano, espalda, región cervical y hombros. Afecta la piel, el tejido subcutáneo e incluso el hueso. Los agentes etiológicos pueden ser hongos verdaderos (eumicetos) o bacterias filamentosas (actinomicetos). Se caracteriza por una masa subcutánea indolora con múltiples fistulas y un exudado que contiene granos. Debido a la lentitud en la progresión de la enfermedad y la baja o casi nula presencia de dolor, junto a la falta generalizada de educación sanitaria y la escasez de establecimientos de salud en las zonas endémicas, muchos pacientes no solicitan atención médica hasta que la infección está ya muy avanzada, cuando el único tratamiento disponible puede ser la amputación. (1)

El término micetoma fue utilizado por primera vez en 1860, por Van Dyke Carter, para nombrar esta enfermedad. Rangel, en 1909, describe el primer caso de actinomicetoma

en Venezuela, y Pino-Pou en 1917, describe el primer caso de eumicetoma en ese mismo país. (2) Cicero, en 1912, describe el primer caso de micetoma en México. En 1917, Linhares, citado por Serrano JA y colaboradores (3) describe el primer caso de micetoma en el Brasil.

Estudios epidemiológicos revisados sobre el tema han tomado como base reportes de casos y series de casos clínicos, con epidemiología descriptiva, de manera que la verdadera incidencia, prevalencia y la distribución geográfica mundial del micetoma aún no es bien conocida. (4) Aunque puede presentarse en pacientes inmunocomprometidos, se describe mayor frecuencia de esta enfermedad en trabajadores agrícolas, obreros, mecánicos, personas que trabajan en condiciones rudimentarias (sin medios de protección y sin calzado cerrado). (4,5) De manera general el micetoma es una entidad muy poco frecuente en Cuba, a pesar de situarse en la zona geográfica de mayor incidencia.

Teniendo en cuenta la baja frecuencia de esta afección tropical en las consultas de ortopedia y contar en este paciente aparentemente sin factores de riesgo, con una historia documentada de su evolución por 15 años, se presenta el caso clínico.

1. Diploma de la Sociedad Internacional de Ortopedia y Traumatología. Doctor en Ciencias Médicas. Especialista en Ortopedia y Traumatología. Correspondencia: eglezm1968@gmail.com

2. Diploma de la Sociedad Internacional de Ortopedia y Traumatología, Especialista en Ortopedia y Traumatología

3. Especialista en Ortopedia y Traumatología. Clínica Central Cira García. La Habana, Cuba.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 52 años de edad, de profesión productor musical, con antecedentes de salud, que hace 14 años acudió por primera vez a consulta de ortopedia por presentar un aumento de volumen del dorso del pie izquierdo sin historia de trauma local. Se le realizaron estudios radiográficos simples donde no aparecieron alteraciones óseas importantes y se diagnosticó como un tumor de partes blandas del dorso del pie. Se realiza exéresis de la masa tumoral en otra institución y el informe de la biopsia no es concluyente de tumor alguno. Durante aproximadamente dos años el paciente está asintomático hasta que refiere que la masa tumoral apareció nuevamente de manera lenta, pero con las mismas características que la anterior. Acude a nuestra consulta ahora con varias fístulas en el dorso del pie que drenaban un líquido trasparente, escaso, con un material sólido de color oscuro como granos de arena. Se decide ingresar para estudio de la lesión.

Examen físico

Presenta un marcado aumento de volumen del dorso del pie que no involucra otras zonas de la extremidad. Hay discreta hiperpigmentación del área con múltiples fístulas pequeñas que drenan escaso líquido trasparente y material sólido oscuro como granos de arena. No hay dolor a la palpación ni Godet y los movimientos del pie (Figura 1) y la articulación tibio-astragalina son normales.

Los pulsos poplíteo y tibial posterior son palpables y sin alteraciones; el pulso pedio está presente, pero con dificultad para su valoración con respecto al pie contralateral. El examen neurológico del pie no arroja alteraciones. El resto del examen físico del paciente es completamente normal.

a)



b)



Figura 1. Imagen oblicua (a) y anteroposterior (b) del miembro afectado que muestran el aumento de volumen del dorso del pie y las fístulas cutáneas.

Los exámenes complementarios de laboratorio incluyeron el hemograma completo, eritrosedimentación y química sanguínea, todos con resultados normales para su edad y sexo. La determinación de factor reumatoideo y proteína C reactiva fueron negativos. Se tomó muestra de secreciones provenientes de la lesión para cultivo bacteriológico y micológico y se identificó el hongo *Exophiala jeanselmei*. Como exámenes de imágenes se realizaron seriadamente radiografías del pie izquierdo ánteroposterior y lateral, radiografía de tórax pósterioanterior (normal) y ecografía de partes blandas del pie. Los hallazgos en este último examen no fueron concluyentes para el diagnóstico.

Rx de pie izquierdo AP y oblicuo evolutivos

Lamentablemente no se dispone de las imágenes iniciales de hace 14 años, pero que según refiere el paciente, fueron interpretadas como normales, sin toma ósea. En la radiografía realizada hace 10 años (Figura 2) solo se observan imágenes de lesiones óseas en el cuello del primer metacarpiano y cabezas del segundo, tercero y cuarto metacarpianos, así como en la falange proximal del grueso artejo.

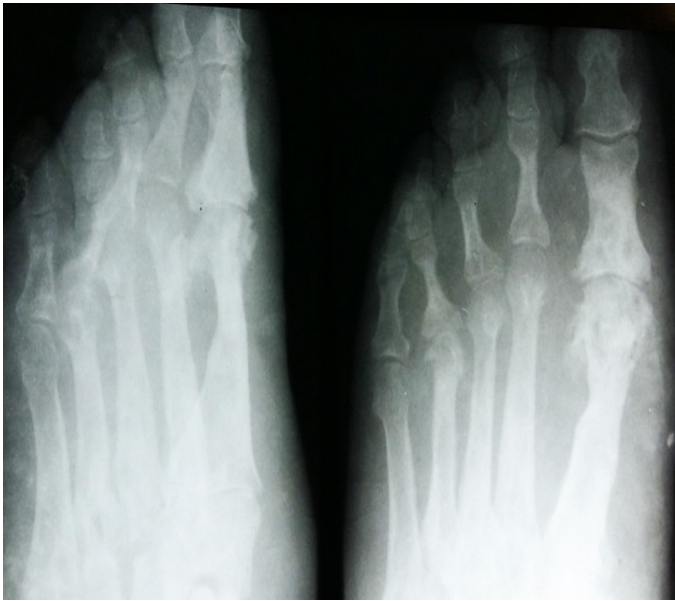


Figura 2. Radiografía del pie izquierdo tomada 10 años atrás.

En la radiografía (figura 3) tomada 10 años después de la anterior se observa que hay lesiones osteolíticas en prácticamente todos los huesos del antepié, tarso y retropié.

El paciente es seguido en el Instituto de Medicina Tropical Dr. Pedro Kouri (IPK) por especialistas en infectología y hasta el momento, después de 2 años de tratamiento con antimicóticos orales, no ha presentado sobreinfecciones, pero no se puede afirmar que hay una mejoría en el cuadro clínico.



Figura 3. Radiografía del pie izquierdo tomada en el momento del reporte.

DISCUSIÓN

Los micetomas son infrecuentes en Cuba y aunque las infecciones fúngicas oportunistas ocurren comúnmente en huéspedes inmunocomprometidos, raramente se ha reportado el micetoma en asociación con la infección por VIH. (4,6) También se han documentado infecciones por hongos periprotésicas en varios artículos de revisión y un acta de consenso para su tratamiento. (7,8) Todos concuerdan en que su tratamiento es difícil, costoso y con resultados muy cuestionados y desalentadores.

En este paciente no se encontraron factores de riesgo ni causa para la infección micótica, que al parecer fue superficial de inicio y con los años sin un tratamiento adecuado, invadió planos profundos del pie hasta el tejido óseo. La literatura revisada plantea que los pacientes con compromiso de la inmunidad son los más propensos a padecer de infecciones profundas por hongos, así como los que sufren de una inoculación directa por una lesión en la piel. Los micetomas producidos por actinomicetos han sido los relacionados con estados de inmunodeficiencia. (9,10)

Por otro lado, el agente infectante es de los menos frecuentes y más difíciles de tratar. (11) Los “azoles” y el Terbinafine son los medicamentos de elección para el tratamiento de la infección profunda por hongos con todas las contraindicaciones y riesgos que conlleva el uso de esos medicamentos por períodos de tiempos prolongados como lo requiere esta entidad. (12)

Existen 63 variedades de *Exophiala* distribuidas por todo el mundo. Se aisló por primera vez en 1928 por Jeanselme en un caso de micetoma negro del pie. (13) *Exophiala jeanselmei* tiene adaptabilidad versátil y puede manifestarse en personas saludables por la implantación traumática en la piel. Una forma común de manifestación clínica de *E. jeanselmei* es la enfermedad granulomatosa crónica. Los granos de este hongo son pequeños, negros en el color y tienen los centros suaves. (14)

En cortes histológicos el aspecto es de un grano que se fragmentó en pequeñas partes. Cada fragmento está compuesto por células dematiáceas redondas o poliédricas de paredes gruesas (clamidoconidia) y muy pequeños fragmentos hifales. (15)

Se necesitan concentraciones inhibitorias mínimas muy altas, tanto del fluconazol, del flucytocine y del myconazol, lo que lo hace bastante resistente. Es más susceptible al itraconazol y terbinafine. Sin embargo, la susceptibilidad in vitro comparada con la eficacia de los agentes antifúngicos sobre las manifestaciones clínicas de este hongo es actualmente desconocida. (14)

Severo LC y colaboradores (15) reportaron un caso de micetoma producido por *E. jeanselmei* en Brasil, el cual fue tratado exitosamente con itraconazol al ser diagnosticado con una historia de 50 años de evolución de las lesiones. Otro caso publicado en Cuba el año 2017 (16) tuvo una localización muy similar al aquí presentado, con lesiones en los huesos del pie muy parecidas, pero con el claro antecedente de una herida en la zona (puerta de entrada) años atrás, que no se recoge en nuestro caso.

Kral A y colaboradores (17) reportaron un caso de micetoma en Chile, en el que no se reconocen factores de riesgo vinculados con esta enfermedad, la localización fue plantar, inicialmente interpretado como una lesión tumoral y la biopsia incisional informó un micetoma.

Un caso reciente publicado en Cuba reporta un actinomicetoma del pie en una paciente femenina de 48 años inmunodeprimida portadora del virus del VIH, en el cual se aisló una *Nocardia* como agente causal de la lesión. (18) En el año 2019 en Argentina (19) se publica otro caso de micetoma en un adulto joven de área rural con historia

de Enfermedad de Hodgkin y bajo quimioterapia y en el que se aisló un *Acremonium*. Estos resultados permiten ubicar al micetoma entre las infecciones oportunistas.

Rochín-Tolosa y colaboradores (18) reportan un caso de origen rural, en el que no se reconoce historia de traumatismo, no se constatan estados de inmunodeficiencia y con localización de las lesiones en una zona de piel poco frecuente, según se describe en la literatura consultada. La localización fue en el grupo muscular posterior de la pierna y respondió favorablemente al tratamiento impuesto con amoxicilina/ácido clavulánico y diaminiiodifenilsulfona durante cuatro meses.

CONCLUSIONES

Micetoma es una entidad nosológica de curso crónico, tratamiento prolongado y costoso; producido por hongos y bacterias, que afectan a individuos generalmente relacionados a labores agrícolas u otras en las que están involucrados detritos vegetales de diferente origen y agua contaminada, sin el adecuado empleo de medios de protección. Las infecciones por actinomicetos se han visto relacionadas con cuadros que determinan déficit de inmunocompetencia, como SIDA, linfomas, etc.

Micetoma of the foot

Abstract

Introduction: Mycetoma is a nosological entity of infectious origin, chronic, deforming and located more frequently at the level of the lower limbs. The etiologic agents may be true fungi (eumycetes) or filamentous bacteria (actinomycetes).

Description: A 52-year-old male patient is presented, with a history of health, with a significant increase in volume of the dorsum of the left foot, who presents multiple small fistulas that drain little transparent liquid and dark solid material such as grains of sand. Serial plain X-rays of the left foot were performed for 14 years, a biopsy of the tumor, a microbiological study, and antifungal treatment was imposed when the etiology was confirmed by *Exophiala jeanselmei*. **Conclusions:** Mycetoma is a disease entity with a chronic course, prolonged and expensive treatments. In the present case without common risk factors such as agricultural work without the proper use of means of protection. Actinomycete infections have been related to conditions that determine immunocompetence deficit.

Keywords: micetoma; *Exophiala jeanselmei*

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Serrano JA, Sandoval AA. El micetoma. Revisión. Rev Soc Ven Microbiol [Internet]. 2003 [citado 10 marzo 2023]; 23(1):70-9. Disponible en: http://ve.scielo.org/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1315-25562003000100016&lng=es
2. Pino Pou R. Sobre un caso de micetoma de granos negros. Preparación microscópica y fotografías. Rev Hosp Varg. 1917; 14:198-301.
3. Serrano JA, Novoa-Montero D. Review on human mycoses in South America. Rev Soc Ven Microbiol [Internet]. 2001 [citado 12 abril 2023]; 21(2): 66-77. Disponible en: http://ve.scielo.org/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1315-25562001000200015&lng=es
4. Sampaio FMS. Mycetoma: 24 years of experience in a reference hospital in Rio de Janeiro. Rio de Janeiro, 2015. 94s. Master [Disertación sobre Investigación Clínica en Enfermedades Infecciosas] - Instituto Nacional de Infectología Evandro Chagas. Disponible en: <https://www.arca.fiocruz.br/handle/icict/25387>
5. Novoa-Montero D, Serrano J A, Boiron P. Epidemiologic models to develop new research on human mycoses. Rev Soc Ven Microbiol [Internet]. 2000 [citado 14 abril 2023]; 20(1): 01-01. Disponible en: http://ve.scielo.org/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1315-25562000000100005&lng=es
6. Castro LGM, Valente NYS, Germano JAM, Vaccari EMH, Lacaz C da S. Mycetoma in an HIV-infected patient. Rev Hosp Clin [Internet]. 1999 [citado 12 abril 2023]; 54(5):169-71. Disponible en: <https://doi.org/10.1590/S0041-87811999000500008>
7. Olivera-Cardozo M, Pérez-Ortiz V, Piñón-Gámez A, Mejía-Montilla J, Reyna-Villasmil E. Infecciones fúngicas cutáneas profundas: Revisión de la literatura; Qhalikay Rev Cien Salud [Internet]. 2018 [citado 14 abril 2023]; 2(3):145-61. Disponible en: <https://revistas.utm.edu.ec/index.php/QhaliKay/article/view/1154>
8. Grupo de trabajo 13. Tratamiento de infecciones articulares periprotésicas por hongos o gérmenes atípicos. Acta Ortop Mex [Internet]. 2013 [citado 14 abril 2023]; 27(S1):S149-S153. Disponible en: <https://www.medigraphic.com/pdfs/ortope/or-2013/ors131r.pdf>
9. Dantas KC, Mauad T, de André CDS, Bierrenbach AL, Saldiva PHN. A single-centre, retrospective study of the incidence of invasive fungal infections during 85 years of autopsy service in Brazil. Sci Rep [Internet]. 2021 [citado 14 abril 2023]; 11(1):3943. Disponible en: <http://www.doi.org/10.1038/s41598-021-83587-1>
10. Gunaydin SD, Arikan-Akdagli S, Akova M. Fungal infections of the skin and soft tissue. Curr Opin Infect Dis [Internet]. 2020 [citado 14 abril 2023]; 33(2):130-6. <http://www.doi.org/10.1097/QCO.0000000000000630>
11. Piontelli LE. Diversidad y polimorfismo en el género Exophiala: manejo de las especies comunes en el laboratorio de baja complejidad. Bol Micol [Internet]. 2013 [citado 14 abril 2023]; 28(1):2-15. Disponible en: <https://rcs.uv.cl/index.php/Bolmicol/article/view/880>
12. Singh S, Rudramurthy SM, Padhye AA, Hemashetter BM, Iyer R, Hallur V, et al. Clinical spectrum, molecular characterization, antifungal susceptibility testing of Exophiala spp. from India and description of a novel Exophiala Species, E. arunalokei sp. nov. Front Cell Infect Microbiol [Internet]. 2021 [citado 12 abril 2023]; 11:686120. Disponible en: <http://www.doi.org/10.3389/fcimb.2021.686120>
13. Jeanselme L, Huet G, Lotte F. Nouveau type de mycétome à grains noirs, due à une Torula non encore décrit. Bull Soc Fr Dermatol Syph. 1928; 35: 369-75.
14. García-Martos P, Márquez A, Gené J. Infecciones humanas por levaduras negras del género Exophiala. Rev Iberoam Micol [Internet]. 2002 [citado 10 abril 2023]; 19:72-9. Disponible en: <http://reviberoammicol.com/2002-19/072079.pdf>
15. Severo LC, Matos Oliveira F, Vettorato G, Londero AT. Mycetoma caused by Exophiala jeanselmei. Report of a case successfully treated with itraconazole and review of the literature. Rev Iberoam Micol [Internet]. 1999 [citado 10 abril 2023]; 16: 57-9. Disponible en: <http://www.reviberoammicol.com/1999-16/057059.pdf>
16. Hernández del Pino S, Aguilasoch Gaxiola MJ. Micetoma, reporte de un caso. Folia Dermatología Cubana [Internet]. 2017 [citado 10 abril 2023]; 11(3):e59. Disponible en: <https://revfdc.sld.cu/index.php/fdc/article/view/59/84>

19. Asial S, Chávez GV, Danze L, Abeldaño A. Micetoma por Acremonium. Dermatol Argent [Internet]. 2019 [citado 12 abril 2023]; 25(4):176-8. Disponible en:

<http://dermatolarg.opensa.com.ar/index.php/dermatolarg/article/view/1895>

20. Rochín-Tolosa M, Rubio-Rodríguez MZ, Rodríguez-Gutiérrez JS, Muñoz-Estrada VF. Micetoma actinomicético, presentación de un caso. Rev Med UAS [Internet]. 2020 [citado 14 abril 2023]; 10(2):89-94. Disponible en:

<https://www.medigraphic.com/cgi-bin/new/resumen.cgi?IDARTICULO=106934>

Recibido: 23, febrero, 2023

Aceptado: 28, abril, 2023