



CARTAS CIENTÍFICAS

Actinomicosis esofágica simulando una neoplasia circunferencial**Esophageal actinomycosis simulating circumferential neoplasia**

La actinomicosis esofágica es una entidad extremadamente rara, existiendo muy pocos casos publicados en la literatura. La gran mayoría se manifiestan como úlceras o erosiones en la mucosa esofágica mimetizando una neoplasia esofágica¹.

Presentamos el caso de una mujer de 76 años con antecedente de cirugía antirreflujo mediante funduplicatura de Nissen en el 2014. Acude a nuestras consultas en septiembre del 2021 por disfagia progresiva para sólidos y líquidos de 15 días de evolución, sin asociar cuadro constitucional. Análíticamente únicamente elevación de proteína C reactiva hasta 50, sin otros hallazgos. Exploración física anodina.

Se solicita una endoscopia digestiva alta y se instaura dieta triturada hasta completar estudio. La paciente acude a Urgencias por intolerancia oral 4 días después. Se realiza la endoscopia digestiva alta que muestra cierta dificultad de paso a nivel del esfínter esofágico inferior. En retroversión se visualizan los puntos de sutura de la funduplicatura previa con leve reacción a cuerpo extraño; se biopsia dicha zona con resultados de inflamación inespecífica. La mucosa esofágica no presentaba ninguna lesión.

La paciente ingresó en planta de hospitalización para estudio. Se realizó un tránsito baritado demostrando una imagen compatible con acalasia-seudoacalasia. Además, se completó el estudio con una TC toracoabdominal que objetivó un engrosamiento circunferencial del tercio medio distal esofágico con presencia de adenopatías sugiriendo malignidad como primera posibilidad. Por este motivo, se realizó una ecoendoscopia en la cual no fue posible acceder a cámara gástrica. Se visualizó un engrosamiento esofágico incluyendo todas las capas, así como la grasa periesofágica y adenopatías sospechosas de malignidad. Se puncionó el engrosamiento con muestras insuficientes. Ante la necesidad de obtención de una muestra histológica, se repitió nuevamente la ecoendoscopia. En esta ocasión, se describe un segmento de 4 cm con mucosa normal estenótico con un engrosamiento de 1 cm con desflecamiento hipoecoico hacia grasa mediastínica, encontrándose la muscular propia normal. En vecindad, varias adenopatías de aspecto benigno. En esta ocasión, la imagen sugería al ecoendoscopista un engrosamiento de características inflamatorias, benignas. Se realizó una punción del engrosamiento para citología, que fue negativa para malignidad con hallazgo

de gránulos de azufre sugestivos de presencia de actinomicosis.

Ante este diagnóstico, se completó el estudio de inmunosupresión con serologías y anamnesis detallada sin hallazgos. Se inició tratamiento con penicilina G por vía intravenosa durante 3 semanas. Tras dicho periodo la paciente presentó una evolución clínica favorable siendo posible ingerir sólidos, así como normalización de la proteína C reactiva en los análisis. Dado que la sospecha inicial era altamente compatible con malignidad, se repitió una ecoendoscopia tras 3 semanas de tratamiento antibiótico por vía intravenosa. En esta ocasión, fue posible acceder a cámara gástrica con el ecoendoscopio comprobando una disminución del engrosamiento y una disminución del tamaño de las adenopatías. La paciente completó el tratamiento con amoxicilina por vía oral durante 6 meses.

Actinomicosis es un bacilo grampositivo, facultativo anaerobio. Es un microorganismo comensal de la flora de la cavidad oral y gastrointestinal. Son bacterias de crecimiento lento que pueden producir abscesos purulentos en los tejidos infectados. La afectación esofágica suele ir precedida de una disrupción mucosa, que permite la entrada de la bacteria. Esta disrupción puede ocurrir tras traumatismos mucosos quirúrgicos o endoscópicos incluso años después de los mismos¹.

Clínicamente suele presentarse como odinofagia y disfagia. Es ligeramente más frecuente en varones que en mujeres. Su prevalencia es mayor en inmunodeprimidos, pero existen casos descritos en inmunocompetentes². Endoscópicamente se han descrito casos de esofagitis, úlceras o masa esofágica.

Este constituye un caso especialmente interesante. Se trata del primer caso reportado de actinomicosis esofágica cuya presentación fue un engrosamiento circunferencial esofágico sin lesiones mucosas. Y, por último, era una paciente inmunocompetente, lo que reduce significativamente la sospecha diagnóstica.

El diagnóstico es un reto, ya que la identificación histológica de la bacteria ocurre en un número reducido de pacientes. El examen microscópico es esencial y típicamente muestra necrosis y gránulos de azufre. El tratamiento consiste en administrar penicilina por vía intravenosa durante de 2 a 4 semanas y posteriormente amoxicilina por vía oral durante aproximadamente 6 meses³.

Bibliografía

1. Alshati A, Appleton L, Maddux JT, Almohammedawi M, Dangerfield B. Esophageal actinomycosis presenting as an

- obstructive esophageal mass. ACG Case Rep J. 2019;6:e00140, <http://dx.doi.org/10.14309/crj.0000000000000140>. PMID: 31620537; PMCID: PMC6722377.
- Palmitessa V, Cuppone R, Monno R, Fumarola L, Lippolis A. A case report of esophageal actinomycosis in an immunocompetent patient and review of the literature. *New Microbiol.* 2019;42:55–60. Epub 2019 Feb 20. PMID: 30785207.
 - Del Olmo Martínez L, Aller de la Fuente R, Velayos Jiménez B, Fernández Salazar L, González Hernández JM. Actinomicosis esofágica [Esophageal actinomycosis]. *Rev Esp Enferm Dig.* 2009;101:372–3 [Spanish]. PMID: 19527087.

L. Zabalza^{a,*}, I. Ezcurra^b, C. Fuertes^c, M. Rullán^b, V. Jusúe^a, S. Montón^d y J.J. Vila^a

^a Servicio de Aparato Digestivo, Hospital Universitario de Navarra, Pamplona, Navarra, España

^b Sección de Aparato Digestivo, Hospital García Orcoyen, Estella, Navarra, España

^c Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario de Navarra, Pamplona, Navarra, España

^d Servicio de Cirugía General, Hospital García Orcoyen, Estella, Navarra, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: luciazabalzasanmartin@gmail.com (L. Zabalza).

<https://doi.org/10.1016/j.gastrohep.2022.05.011>
0210-5705/

© 2022 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Migratory intestinal stenosis by primary intestinal amyloidosis. A case report



Estenosis intestinal migratoria por amiloidosis intestinal primaria. A propósito de un caso

Amyloidosis is a disease characterized by the deposit of amyloid protein material in the organs causing their dysfunction. Different types of amyloidosis have been described according to the aetiology. These include primary amyloidosis (AL) and secondary amyloidosis (AA), among others. It can also be classified according to its location: systemic or localized amyloidosis. Localized amyloidosis most frequently affects the respiratory and lower urinary tract and subcutaneous tissue.¹ Isolated intestinal involvement is infrequent. In fact, in a meta-analysis published by Alsheri et al., there were only 14 cases identified that were published between 1960 and 2019.² This report presents the case of a patient with AL localized in the intestine with an atypical presentation based on migratory stenosis that responded to oral corticosteroid treatment.

A 72-year-old man with no toxic habits and no medical history was admitted because of 3 days of evolution of abdominal pain, vomiting and constipation. The patient had suffered 4 similar episodes in the previous two months.

Blood analysis showed an increase of acute phase reactants (15,000 leukocytes and 8 mg/dl C-reactive-protein). Abdominal computed tomography (CT) revealed a progressive calibre change in the right iliac fossa without identifying the cause and three segmental thickenings in the jejunum (Fig. 1a). An upper intestinal enteroscopy was performed, visualizing a stricture in the jejunum with prestenotic dilatation and two ulcerations with fibrin. Biopsies were taken (Fig. 1b). 72 h after the procedure, he presented clinical worsening so a CT-scan was repeated. Jejunal thickenings in different locations to those observed in the previous scans were seen (Fig. 1c). While waiting for the results of the biopsies, a systemic steroid treatment was started under inflammatory bowel disease suspicion. The patient evolved

favourably, presenting both clinical and radiological resolution.

The histological study showed nodular deposits of amorphous eosinophilic hyaline material in the submucosa, Congo red positive and permanganate resistant, compatible with primary intestinal amyloidosis (Fig. 1d). The study was completed with bone marrow aspirate, a subcutaneous fat biopsy, a cardiac resonance and a urine study, ruling out systemic involvement.

The digestive tract is involved in up to 60% of AL cases. However, the isolated involvement of this organ is exceptional. The clinical presentation depends on the area, abdominal pain and intestinal obstruction in the small intestine (commonly in jejunum) and rectal bleeding when involving the colon (commonly in sigmoid).²

Localized AL has a low risk of progressing to a systemic disease and therefore has a better prognosis than systemic AL. Localized AL is often managed with local endoscopic and surgical treatment. A systemic treatment is usually avoided due to unfavourable risk/benefit.³ In our case, local treatment was ruled out due to the location of the lesions and their migratory nature. After the clinical response to the steroid therapy, a progressive withdrawal of treatment was attempted. However, the patient presented recurrence of the subocclusive symptoms when the dose of steroids was reduced below 10 mg. It was decided that the treatment would be maintained chronically at the lowest effective dose.

An extensive review of literature found no cases of intestinal localized AL treated with steroids. However, in systemic AL, corticosteroids are used extensively with other chemotherapy agents such as bortezomib.⁴

In conclusion, intestinal localized AL is a rare entity. Systemic steroid therapy could be helpful in those cases where local treatment cannot be performed. Studies to confirm the hypothesis that our case suggests are needed.

Patient consent

The patient has given his informed consent to publish the information included in the article.