



ACADEMIA ESPAÑOLA
DE DERMATOLOGÍA
Y VENEREOLÓGIA

ACTAS Dermo-Sifiliográficas

Full English text available at
www.actasdermo.org



CARTA CIENTÍFICO-CLÍNICA

Nódulos de distribución esporotricóide en una paciente con sarcoidosis

Sporotrichoid Nodules in a Woman With Sarcoidosis

Sr. Director:

Mycobacterium chelonae es una micobacteria atípica incluida entre las micobacterias de crecimiento rápido no cromógenas¹. Es de distribución universal, encontrándose normalmente en fuentes de origen ambiental, como el agua y el suelo²⁻⁵. *M. chelonae* es una de las micobacterias que más frecuentemente producen infección cutánea en los pacientes inmunocomprometidos. En estos pacientes las lesiones pueden ser más profundas y/o diseminadas. Puede manifestarse en forma de abscesos, nódulos eritematosos y dolorosos², foliculitis, celulitis y lesiones de distribución esporotricóide³. La mayoría de los casos son nosocomiales, generalmente en relación con procedimientos traumáticos, quirúrgicos o cosméticos, aunque en muchas ocasiones estos antecedentes pueden no ser evidentes²⁻⁵.

Una mujer de 70 años, con antecedentes de sarcoidosis en estadio III en tratamiento con inhaladores de salmeterol/propionato de fluticasona y terbutalina y prednisona 10 mg diarios, acudió a la consulta de dermatología por unas lesiones en el antebrazo izquierdo de un mes de evolución. La paciente no recordaba antecedente traumático previo. No refería fiebre ni otra sintomatología sistémica asociada. A la exploración física se apreciaban 2 nódulos eritematosos, infiltrados, uno en el dorso de la mano izquierda y otro en el dorso del antebrazo izquierdo, de distribución esporotricóide (fig. 1 A). Ante la sospecha de una micosis profunda o de una sarcoidosis cutánea se tomó una biopsia cutánea en cuyo estudio histológico se observaba un infiltrado inflamatorio intenso en la dermis profunda, constituido por linfocitos, histiocitos y agregados de polimorfonucleares con restos celulares. Con la tinción de Ziehl-Neelsen se apreciaban unas estructuras alargadas de color rosa (fig. 2). Con el diagnóstico histopatológico de dermatitis nodular granulomatosa y supurativa de probable origen infeccioso, se realizó extracción de ADN para su estudio microbiológico por PCR que, junto con el cultivo, confirmó el diagnóstico de infección cutánea por *M. chelonae*. Se pautó tratamiento



con claritromicina 500 mg/12 horas durante 4 meses, con una respuesta inicial buena. Tras finalizar el tratamiento se constató una recidiva, por lo que se realizó un estudio de sensibilidad antibiótica, siendo únicamente sensible a claritromicina, etionamida y tobramicina. Durante el seguimiento se detectó una hipogammaglobulinemia con IgG de 380 mg/dl (valores normales > 650 mg/dl) y una linfopenia B de 30 cél./ml (valor normal > 100). Revisando su historia tenía antecedentes de infecciones respiratorias y bronquiectasias, lo que llevó al diagnóstico de inmunodeficiencia primaria (IDP) por déficit predominante de anticuerpos, iniciándose tratamiento sustitutivo con inmunoglobulinas intravenosas a dosis de 0,4 mg/kg cada 3 semanas que, junto con el tratamiento antibiótico con claritromicina durante 2 meses más, resolvió las lesiones de forma definitiva (fig. 1 B).

La infección por *M. chelonae* de distribución esporotricóide se debe a la propagación ascendente de la micobacteria a lo largo de las cadenas linfáticas⁶, patrón poco habitual del cual se han descrito tan solo 15 casos en la literatura (tabla 1), ninguno de ellos en un paciente con sarcoidosis. El diagnóstico diferencial ha de hacerse fundamentalmente con otros patógenos que habitualmente se presentan con dicho patrón, como *Sporothrix schenckii*, *Mycobacterium marinum*, *Nocardia* o *Leishmania*.

Ante una infección por micobacterias atípicas, especialmente si se presenta con un patrón poco frecuente como el esporotricóide, es recomendable descartar una alteración del sistema inmune. Las manifestaciones dermatológicas más frecuentes de las IDP son las infecciones cutáneas. La susceptibilidad puede ser específica a determinados patógenos, dependiendo del componente del sistema inmunitario que se vea afectado⁷. Las IDP debidas a mutaciones en los genes de $\text{IFN}\gamma$, que presentan un defecto en la función fagocítica sin alteración en la inmunidad humoral, son susceptibles a infecciones graves diseminadas causadas por micobacterias atípicas⁸. En nuestro caso se encontró un déficit de IgG con linfopenia B. Los déficits de anticuerpos cursan habitualmente con infecciones bacterianas del aparato respiratorio, que también había presentado la paciente.

La biopsia es fundamental para el diagnóstico. Histopatológicamente se pueden encontrar diferentes patrones entre los que destacan un infiltrado difuso de histiocitos, microabscesos, paniculitis, granulomas tuberculoideos o sarcoides y/o vasculopatía reactiva⁹. Los bacilos ácido alcohol resistentes se evidencian mediante tinciones específicas como Ziehl-Neelsen, aunque un resultado negativo

<https://doi.org/10.1016/j.ad.2020.12.007>

0001-7310/© 2021 AEDV. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

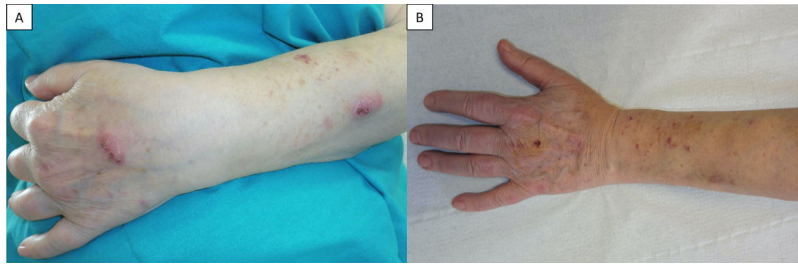


Figura 1 A. Dos nódulos eritematosos infiltrados de distribución esporotricóide en el dorso de la mano y en el antebrazo izquierdo. B. Resolución de las lesiones tras el tratamiento.

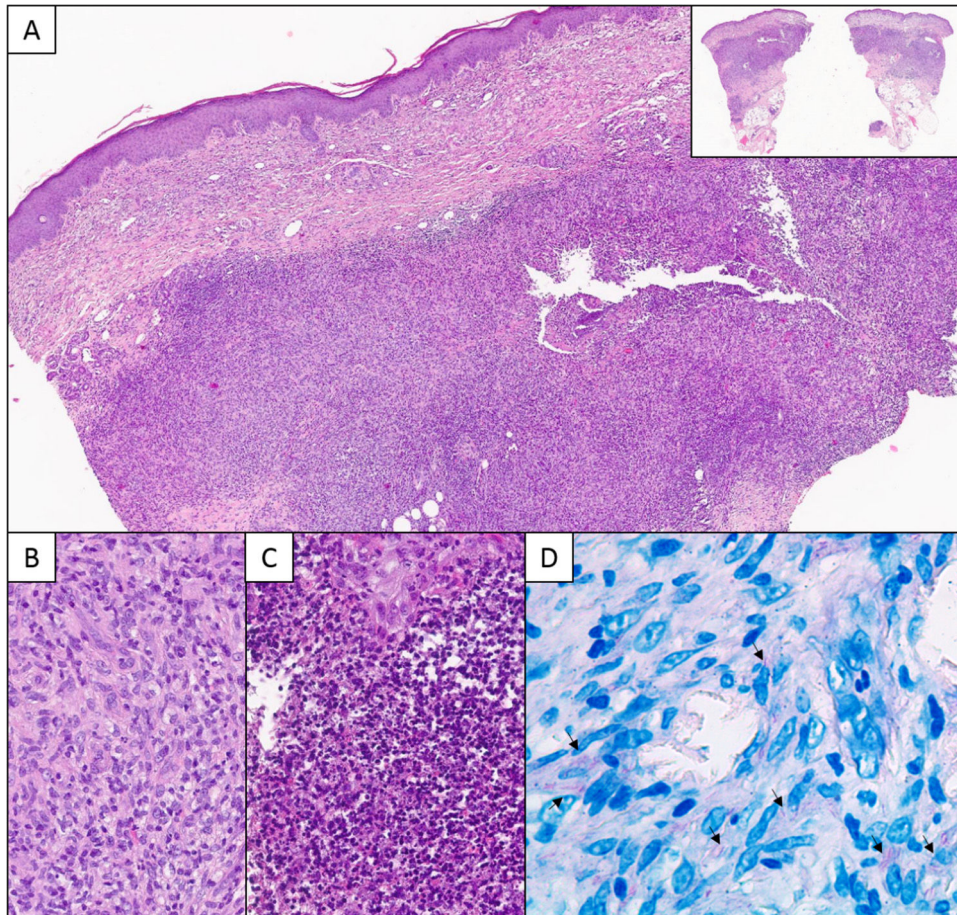


Figura 2 A. Corte histológico que muestra un infiltrado dérmico profundo granulomatoso de patrón nodular (detalle panorámico en la esquina superior derecha) (H-E 40 x). B. Detalle del infiltrado, constituido por linfocitos e histiocitos (H-E 200 x). C. Áreas supurativas con abundantes neutrófilos y restos celulares (H-E 400 x). D. Técnica histoquímica de Ziehl-Neelsen. Flechas señalando estructuras alargadas de color rosa (630 x).

no descarta una micobacteriosis^{5,10}. El diagnóstico se confirma mediante el cultivo o con técnicas moleculares como la PCR-RFLP^{2,10}.

Respecto al tratamiento *M. cheloane* suele mostrar un patrón de resistencia impredecible, por lo que las pruebas de susceptibilidad son imprescindibles. Si bien en la mayoría de los casos con infecciones localizadas el tratamiento con claritromicina en monoterapia es suficiente, es recomendable

el uso de terapia combinada debido al desarrollo potencial de resistencias durante la terapia, a menudo prolongada^{6,11}. En algunos casos el tratamiento quirúrgico adyuvante puede estar indicado⁵.

En conclusión, ante la presencia de lesiones cutáneas de distribución esporotricóide se debe descartar una infección por micobacterias atípicas, especialmente si aparecen en un paciente inmunodeprimido.

Tabla 1 Casos de infección cutánea por *M. chelonae* de distribución esporotricoides descritos en la literatura

Caso	Edad/ sexo	Localización	Enfermedad de base	Inmuno- depresión	Tratamiento	Recidiva	Tratamiento tras recidiva
Greer, 1979 ¹²	76/M	Pierna		No	Isoniacida + amitozona	No	
Higgins, 1988 ¹³	65/M	Antebrazo	Hepatitis crónica activa	Sí	Eritromicina + amikacina	No	
Murdoch, 1989 ¹⁴	61/M	Pierna	Trasplante renal	Sí	Piracinamida + rifampicina 6 meses	Sí	Eritromicina
Jopp-McKay, 1990 ¹⁵	52/M	Pierna	Trasplante renal	Sí	Minociclina 2 meses	Sí	TMP-SMX + Cirugía
Zahid, 1994 ¹⁶	70/H	Mano	EPOC	Sí	Ciprofloxacino + claritromicina 6 meses	No	
Endzweig, 2001 ¹⁷	59/H	Pierna	Trasplante renal	Sí	Cirugía + ciprofloxacino + TMP-SMX + imipenem	Sí	Cirugía + amikacina + cefoxitina + claritromicina
Haas, 2001 ¹⁸	66/M	Antebrazo	Artritis reumatoide	Sí	TMP-SMX + claritromicina	Sí	Azitromicina + ciprofloxacino + Cirugía
Demitsu, 2001 ¹⁹	46/H	Antebrazos	Insuficiencia cardiaca congestiva. Diabetes mellitus	No	Minociclina 2 meses	Sí	Cirugía
Rosón, 2002 ²⁰	42/M	Antebrazo		No	Minociclina	No	
Phillips, 2008 ²¹	43/M	Antebrazo	Panuveítis bilateral	Sí	Imipenem + piperacilina- tazobactam + amoxicilina- clavulánico 5 meses	No	
de Vasconcelos, 2015 ²²	60/H	Antebrazo	Artritis reumatoide	Sí	Claritromicina 6 meses	No	
Orrin, 2016 ²³	65/M	Pierna	Neumonía organizada criptogenética	Sí	Claritromicina 9 meses	No	
Boulavsky, 2017 ²⁴	75/M	Pierna y pie	Nefritis lúpica	Sí	Claritromicina + amikacina + levofloxacino	No	
Kemp, 2017 ³	54/M	Antebrazo	Lupus eritematoso sistémico	Sí	Linezolid + claritromicina 4 meses	No	
DuBow, 2019 ⁶	31/M	Pierna	Lupus eritematoso sistémico	Sí	Linezolid + claritromicina 8 meses	Sí	Linezolid + claritromicina 3 meses
Nuestro caso	70/M	Antebrazo	Sarcoidosis. IDP	Sí	Claritromicina 4 meses	Sí	Claritromicina 2 meses + IGIV

EPOC: enfermedad pulmonar obstructiva crónica; H: hombre; IDP: inmunodeficiencia primaria; IGIV: inmunoglobulinas intravenosas; M: mujer; TMP-SMX: trimetoprim-sulfametoxazol.

Bibliografía

- García-Martos P, García-Agudo L. Infecciones por micobacterias de crecimiento rápido [Infections due to rapidly growing mycobacteria]. *Enferm Infecc Microbiol Clin*. 2012;30:192–200, <http://dx.doi.org/10.1016/j.eimc.2011.09.017>.
- Abal L, Sanmartín V, Falguera M, Casanova JM. Nódulos eritematosos en una paciente de hemodiálisis [Erythematous nodules in a patient receiving hemodialysis]. *Enferm Infecc Microbiol Clin*. 2010;28:386–8, <http://dx.doi.org/10.1016/j.eimc.2009.06.013>.
- Kemp DM, Govind AG, Kang J, Brugger CC, Kauh YC. Sporotrichoid-like spread of cutaneous *Mycobacterium chelonae* in an immunocompromised patient. *Case Rep Dermatol Med*. 2017;2017:8219841, <http://dx.doi.org/10.1155/2017/8219841>.

4. García-Harana C, Aguilar-Bernier M, Segura-Palacios JM, de Troya-Martín M. Panniculitis due to atypical mycobacteria after mesotherapy paniculitis por micobacterias atípicas tras mesoterapia. *Actas Dermosifiliogr.* 2018;109:747, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ad.2017.03.027>.
 5. Gonzalez-Santiago TM, Drage LA. Nontuberculous Mycobacteria: Skin and soft tissue infections. *Dermatol Clin.* 2015;33:563–77, <http://dx.doi.org/10.1016/j.det.2015.03.017>.
 6. DuBow A, Morand M, Désy D, Krasny M. Recurrence of cutaneous Mycobacterium chelonae infection: A case report. *SAGE Open Med Case Rep.* 2019;7, <http://dx.doi.org/10.1177/2050313X19845231>, 2050313X19845231.
 7. Bojtor AE, Sárdy M, Maródi L. Az elsődleges immunhiány-betegségek bőrmanifesztációi [Cutaneous manifestations in primary immunodeficiency diseases]. *Orv Hetil.* 2018;159:937–47, <http://dx.doi.org/10.1556/650.2018.30994>.
 8. Lehman H. Skin manifestations of primary immune deficiency. *Clin Rev Allergy Immunol.* 2014;46:112–9, doi:10.1007/s12016-013-8377-8.
 9. Santa Cruz DJ, Strayer DS. The histologic spectrum of the cutaneous mycobacterioses. *Hum Pathol.* 1982;13:485–95, doi:10.1016/s0046-8177(82)80032-4.
 10. Uslu U, Böhm O, Heppt F, Stichlerling M. Skin and soft tissue infections caused by Mycobacterium chelonae: More common than expected? *Acta Derm Venereol.* 2019;99:889–93, <http://dx.doi.org/10.2340/00015555-3230>.
 11. Wallace RJ Jr, Swenson JM, Silcox VA, Bullen MG. Treatment of nonpulmonary infections due to Mycobacterium fortuitum and Mycobacterium chelonae on the basis of in vitro susceptibilities. *J Infect Dis.* 1985;152:500–14, <http://dx.doi.org/10.1093/infdis/152.3.500>.
 12. Greer LL, Strandberg JD, Whitaker BR. Mycobacterium chelonae osteoarthritis in a Kemp's ridley sea turtle (*Lepidochelys kempii*). *J Wildl Dis.* 2003;39:736–41, <http://dx.doi.org/10.7589/0090-3558-39.3.736>.
 13. Higgins EM, Lawrence CM. Sporotrichoid spread of Mycobacterium chelonae. *Clin Exp Dermatol.* 1988;13:234–6, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2230.1988.tb00686.x>.
 14. Murdoch ME, Leigh IM. Sporotrichoid spread of cutaneous Mycobacterium chelonae infection. *Clin Exp Dermatol.* 1989;14:309–12, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2230.1989.tb01990.x>.
 15. Jopp-McKay AG, Randell P. Sporotrichoid cutaneous infection due to Mycobacterium chelonae in a renal transplant patient. *Australasian Journal of Dermatology.* 1990;31:105–9, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1440-0960.1990>.
 16. Zahid MA, Klotz SA, Goldstein E, Bartholomew W. Mycobacterium chelonae (*M. chelonae* subspecies *chelonae*): report of a patient with a sporotrichoid presentation who was successfully treated with clarithromycin clarithromycin and ciprofloxacin. *Clin Infect Dis.* 1994;18:999–1001, <http://dx.doi.org/10.1093/clinids/18.6.999>.
 17. Endzweig CH, Strauss E, Murphy F, Rao BK. A case of cutaneous Mycobacterium chelonae abscess infection in a renal transplant patient. *J Cutan Med Surg.* 2001;5:28–32, <http://dx.doi.org/10.1177/120347540100500107>.
 18. Haas SR, Hodge MB, Duncan RA. Cushing's syndrome presenting as disseminated cutaneous Mycobacterium chelonae infection. *Clin Infect Dis.* 2001;33, e51-3, <https://doi.org/10.1086/322629>.
 19. Demitsu T, Nagato H, Inoue T, Yoneda K, Fujiwara Y, Miura M, Manabe M. Cutaneous Mycobacterium chelonae infection with bilateral sporotrichoid involvement. *Int J Dermatol.* 2001;40:597–9, <http://dx.doi.org/10.1046/j.1365-4362.2001.01261.x>.
 20. Rosón E, García-Doval I, de la Torre C, Losada A, Feal C, Cruces M. Sporotrichoid spread of Mycobacterium chelonae in a presumably immunocompetent patient. *Acta Derm Venereol.* 2002;82:142–3, <http://dx.doi.org/10.1080/00015550252948248>.
 21. Phillips K, Blackford S, Berry N. Disseminated cutaneous Mycobacterium chelonae infection with multidrug resistance in a patient with panuveitis. *Clin Exp Dermatol.* 2008;33:256–8, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2230.2007.02605.x>.
 22. de Vasconcelos P, Soares-Almeida L, Filipe P, Kutzner H. Subcutaneous nodules with sporotrichoid spread in the forearm of a patient with rheumatoid arthritis. *Acta Reumatol Port.* 2015;40:89–90.
 23. Orrin E, Worsnop F, Natkunarajah J. Sporotrichoid Mycobacterium chelonae. *Australas J Dermatol.* 2016;57:244–5, <https://doi.org/10.1111/ajd.12327>.
 24. Boulavsky JL, Wright HM, Rodriguez-Waitkus PM, DiNardo AR, Woc-Colburn LE, Dao H Jr. Sporotrichoid pattern of Mycobacterium chelonae-abscessus infection. *Cutis.* 2017;100. E4-5.
- A. Navarro-Bielsa^{a,*}, A. Bielsa^b,
M.C. Gomez-Mateo^c e I. Abadías-Granado^a
- ^a *Servicio de Dermatología, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España*
^b *Servicio de Medicina Interna, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España*
^c *Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España*
- * Autor para correspondencia.
 Correo electrónico: albanavarrobielsa@hotmail.com
 (A. Navarro-Bielsa).