

INSTITUTO DE GASTROENTEROLOGIA

## Cigomicosis del colon.

### Presentación de un caso

Por los Dres.:

ELADIO BLANCO RABASSA,\* TRINI FRAGOSO ARBELO,\*\* RAMON VIDAL VIDAL,\*\*\*  
ALEJANDRO GARCIA GUTIERREZ,\*\*\*\* CARLOS CASTAÑEDA GUILLOT,\*\*  
EDUARDO SAGARO GONZALEZ\*\*

Blanco Rabassa, E. *Cigomicosis del colon. Presentación de un caso.* Rev Cub Ped 48: 3, 1976.

Se presenta un caso de cigomicosis del colon en un niño de 11 años de edad, cuyo caso es el primero informado en Cuba. Se insiste en la efectividad del tratamiento con anfotericin B y la evolución satisfactoria de la enfermedad.

#### INTRODUCCION

Como agente etiológico de la cigomicosis en el orden de los mucorales se consideran distintas especies, por ejemplo *Rhizopus*, *Mucor* o las Absidias usualmente consideradas como no patógenas y sí como contaminantes.

En muchos de los casos informados estos organismos no han podido ser cultivados, sin embargo la especie *Rhizopus oryzae* ha sido aislada en un paciente con mucormicosis de localización cerebral<sup>1</sup> al igual que el *Rhizopus arrhizus* en ulceraciones de la boca.<sup>2</sup> Se acepta que las hifas no tabicadas de estos hongos presentan largas ramas que orientan ha-

cia la identificación de los mucorales. Igualmente estos organismos han sido causales de enfermedades en los perros, caballos, ganado vacuno y porcino.<sup>1</sup>

La cigomicosis, que constituye la entidad del paciente en cuestión, comprende un grupo de afecciones agudas o crónicas, a veces mortales, de diversos tejidos del organismo producidas por hongos pertenecientes a la clase cigomicetes. Los conceptos han ido variando; antiguamente la enfermedad, motivo de este estudio era denominada mucormicosis porque sólo se consideraban patógenos para el hombre los hongos pertenecientes al orden mucorales. Posteriormente, con el descubrimiento de afecciones subcutáneas provocada por *Entomophthorales*, la enfermedad se llamó vicomicosis. Con los adelantos taxonómicos se suprimió la clase ficomicetos (hongos de micelio continuo) y quedaron los *cigomicetos* como clase y por ende la enfermedad se designó con el nombre de "*cigomicosis*" (cuadro I).

El primer informe de infección en humanos por hongos del orden de los mu-

\* Profesor de pediatría. Responsable del servicio de pediatría. Instituto de Gastroenterología.

\*\* Especialista de primer grado en gastroenterología. Instituto de gastroenterología.

\*\*\* Profesor de microbiología. Asesor del departamento de micología de los hospitales "Cmde. Manuel Fajardo" y "Gral. Calixto García".

\*\*\*\* Profesor de cirugía del hospital "Gral. Calixto García". Responsable nacional de cirugía.

corales fue hecho por *Pultaufl* en el año 1885<sup>1,2,3</sup> con localizaciones en el pulmón, cerebro, cerebelo, faringe e ileon; después de esta información la mayoría de los pacientes informados sólo ha sido a nivel de un órgano o sistema.

*Moore y col.*, en 1949,<sup>4</sup> describen un caso en el curso de una colitis ulcerativa.

*Martin y col.*, en 1954,<sup>5</sup> informan un paciente con lesiones esofágicas en el curso de una sepsis generalizada.

*Baker y col.*, en 1957<sup>6</sup> comunicaron dos casos con localización en intestino delgado y otro en el colon. Las lesiones se caracterizaron por hemorragia, necrosis y ulceraciones, tanto a nivel del intestino delgado como en el colon. *Clark*<sup>7</sup> en el mismo año informa un paciente con localización en duodeno, ciego e hígado

con grandes lesiones granulomatosas que eran indiferenciables de un carcinoma.

*Isaacson y Levin*, en 1961,<sup>8</sup> publicaron el estudio necrópsico de cinco niños comprendidos entre las edades de 6 días a un año con localización digestiva, dándole gran importancia al estado nutricional, sepsis y hábito alimentario (ver cuadro II).

*Neame y Raynor* en 1960<sup>9</sup> estudian 22 pacientes con mucormicosis de distintas localizaciones viscerales, de los cuales 20 presentaron alteraciones digestivas en el orden siguiente: estómago 12; colon 10; hígado 13; esófago 2; vesícula 1 e ileon 1.

*Alvarez*,<sup>10</sup> en 1971, informa el primer caso diagnosticado en nuestro medio de cigomicosis nasal en un lactante de 10 meses curado con anfotericin B.

## CUADRO I

### CLASIFICACION

*Phylum Eumycophyta*

↓  
*Clase Cigomycetes*

↓  
Orden

#### MUCORALES

##### FAMILIA MUCORACEAE

Géneros:

Rhizopus  
Mucor  
Absidia

##### FAMILIA CUNNIGHAMELLACEAE

Géneros:

Cunnighamella

##### FAMILIA MORTIERELLACEAE

Género:

Mortierella

#### ENTOMOPHTORALES

##### FAMILIA ENTOMOPHTORALES

Género:

Entomophthora 3. Coronata  
Basidiobolus (Especie: B. meristosporus)  
B. ranarum  
B. meristosporus  
B. haptosporus  
B. magnus

CUADRO II  
CASOS DE CIGOMICOSIS DEL TRACTO DIGESTIVO

Año	Autor	País	Edad	R	S	Duración de la micosis en días	Localización	Causa de muerte
1885	Pultauff	Austria	52 a.	B	M	17	íleon terminal	septicemia micótica
1949	Moore, Anderson y Everett	EUA (Wisconsin)	37 a.	B	F	15	colon	peritonitis
1954	Martin y col.	EUA (Texas)	2¼ a.	B	M	8	esófago	diseminación micótica
1957	Baker y col.	EUA (N.C)	43 a.	B	M	2	estómago, intestino delgado y grueso	hemorragia
		EUA (Miss)	75 a.	B	M	12	colon prox.	neumonía
1957	Clark	EUA (Ohio)	59 a.	B	M	60	duodeno ciego e hígado	bronconeumonía
1961	Isaacson y Levin	Africa del Sur	1 a.	N	M	7	estómago, colon y páncreas	bronconeumonía
			7 m.	N	M	6 h	esófago	bronconeumonía
			4½ m.	N	M	46	yeyuno e íleon	bronconeumonía
			10 d.	N	F	2	estómago	perforación gástrica peritonitis
			6 d.	N	M	12	colon	peritonitis

### *Presentación del caso*

H. C. 43784. Paciente de 11 años de edad, del sexo masculino y la raza blanca, que ingresa en el servicio de pediatría del Instituto de Gastroenterología por sangramiento rectal de 2 meses de evolución; con antecedentes de haber estado ingresado en dos ocasiones por dolores abdominales y diarreas. Se le había instituido tratamiento con paromomicina y baskir un año y medio antes de su ingreso pues se consideró como una infección amebiana.

Padece asma bronquial desde el año de edad.

### *Examen físico*

Peso: 58 lb.

Talla: 131 cm.

Abdomen: Se palpa cuerda cólica. Resto negativo.

### *Investigaciones realizadas*

Heces fecales seriadas: fueron utilizados distintos medios que resultaron siempre negativos, con excepción de uno en que se aisló *Giardia lamblia*.

Coprocultivos seriados: negativos.

Examen del contenido duodenal: negativo.

Perfil hepático: normal.

Células LE: negativo.

Conteo absoluto de eosinófilos en sangre: 2 350.

Electroforesis de las proteínas: PT: 6,8 g.

Gammaglobulina: 28%

Estudio hematológico: normal.

*Estudio radiológico del colon:* Se observa en el estudio simultáneo de relleno y doble contraste, estrechamiento del colon descendente en una extensión amplia desde el ángulo esplénico hasta la unión del sigmoide con espiculado fino y retracción. No se distiende al pase del aire. No hay toma del recto por lo que se plantea el diagnóstico de una colitis granulomatosa (figuras 1, 2, 3, 4, 5 y 6).

*Colonoscopia:* Se introduce el instrumento hasta unos 25 cm de la margen del ano. En el extremo proximal se constata imagen granulomatosa en la cual se toma muestra para biopsia. En la imagen endoscópica se observa una mucosa discretamente atrófica y puede observarse a través de la misma los vasos de la submucosa. Se mantuvo el diagnóstico de colitis granulomatosa.

El diagnóstico histológico realizado por rectosigmoidoscopia y por colonoscopia, o sea, de recto y colon respectivamente no fueron concluyentes.

El hecho de mantener sangramiento rectal y no observar mejoría clínica con azulfidina y ante la posibilidad de una complicación, ya fuese hemorragia profusa o perforación, se determina intervenir al enfermo realizándosele hemicolectomía izquierda; se restablece la continuidad mediante la técnica de Duhamel y se mantiene el diagnóstico de colitis granulomatosa.

### *Estudio anatomopatológico*

*Macroscópico:* Segmento de colon que mide 30 cm de longitud, la serosa de color pardo oscuro, aspecto congestivo; se observa la mucosa deslustrada, de superficie irregular y paredes engrosadas que disminuyen su luz (figura 7).

*Microscópico:* Lesión granulomatosa, área central de necrosis fibrinoide con reacción periférica a células epiteloideas con células gigantes y linfocitos (figuras 8 y 9).

Se observa necrosis eosinofílica granular (fenómeno de Splendor-Hoepli) (figuras 10 y 11).

Se demostraron las hifas de mucorales (figuras 12, 12a y 12b).

Para el estudio histológico se utilizó como coloración especial plata-metamina contrastada con Light Green.

*Estudio micológico:* La identificación del hongo se realizó en heces fecales en el medio de Sabouraud, a los 3 días de la intervención, cuando se sospechó la etiología micótica por el estudio histológico, donde se cultivó un organismo de

la clase zigomicetes del orden mucorales, familia *Mucoraceae* y género *Absidia*.

Es de señalar que al examinar los estudios histológicos con el fenómeno de Splendor-Hoepli, o sea la necrosis eosinofílica granular y la presencia de algunas hifas tabicadas, esperábamos cultivar un *Entomophthora*, ya que este fenómeno no es tan característico de los mucorales, pero el cultivo fue evidente de una *Absidia*.

El tratamiento instituido previo al diagnóstico fue de azulfidina durante 25 días (2 gramos diarios). Al llegar el diagnóstico micológico se le impone tratamiento con anfotericin B por vía endovenosa: 0,10 mg/kg x día; 0,25, 0,75 y 1 mg, hasta darle un gramo como dosis total. Las reacciones secundarias observadas fueron cefalea intensa, escalofríos, fiebre de 40°C, cristaluria y uremia ligera.



Figura 1.



Figura 2.



Figura 3.

Figuras 1, 2 y 3. Se observa estrechamiento del colon descendente en una extensión amplia desde el ángulo esplénico hasta la unión del sigmoide.

Fue dado de alta a los 2 y medio meses de la intervención, realizándose previo al alta estudios rectosigmoidoscópicos y radiológico evolutivo.

#### COMENTARIOS

La infestación por este hongo se ha evidenciado mucho más en enfermos debilitados y en los que han recibido tratamiento prolongado con antibióticos, antimetabolitos, corticoesteroides, y radioterapia.

Se señala por la mayoría de los autores como causa predisponente la Diabetes mellitus y la leucemia.

El hecho de no encontrar en el caso estudiado por nosotros, enfermedades u otros factores de los señalados como predisponente, el cultivo del hongo en las heces fecales y las hifas en el estudio histológico nos afirma estar frente a una colitis específica de etiología micótica.



Figura 4.



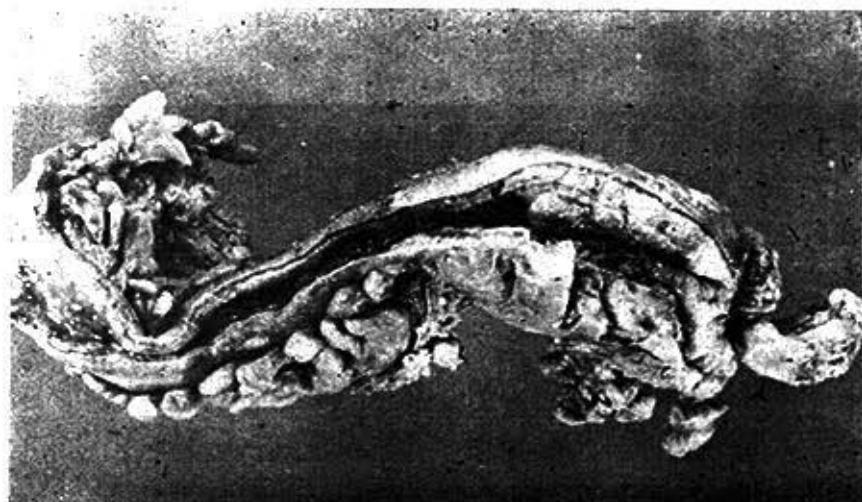
Figura 5.



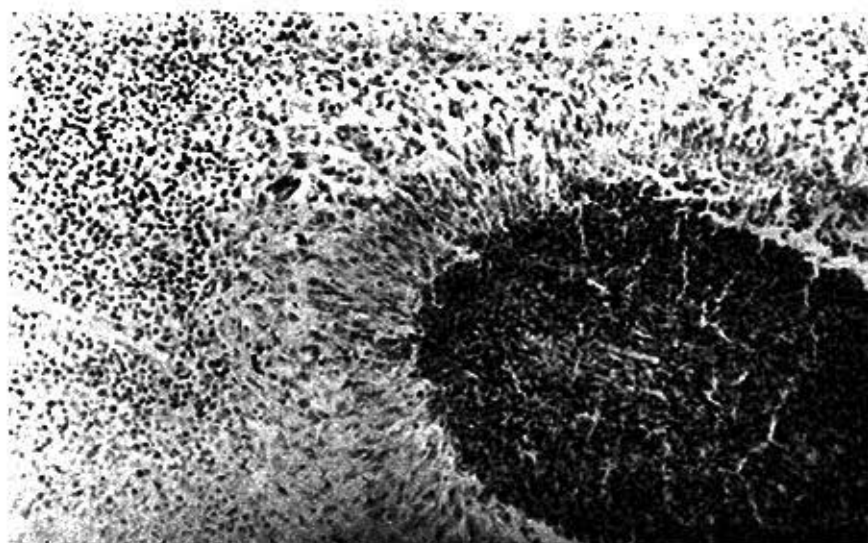
Figura 6.

*Figuras 4, 5 y 6. En la zona estrechada no se distiende al pase del aire; se evidencia espiculado fino y retracción. No hay toma del recto.*





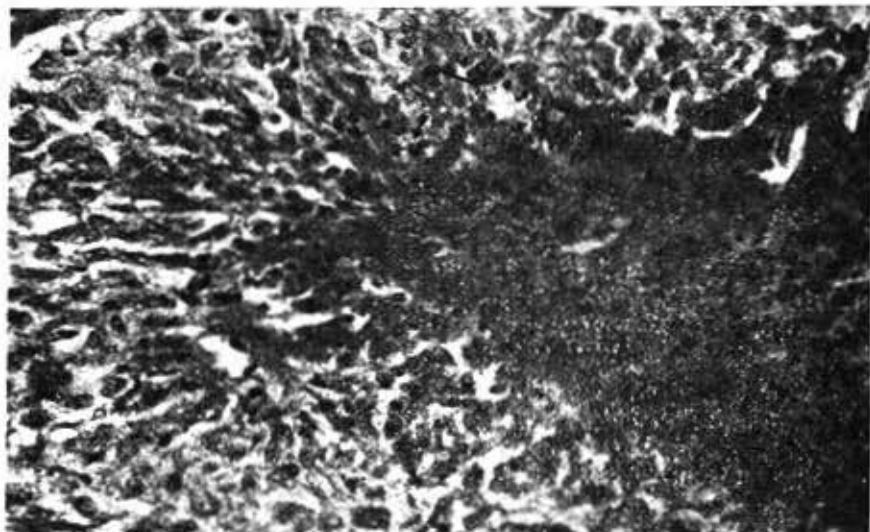
*Figura 7. Pieza quirúrgica: segmento de colon que mide 30 cm de longitud; la mucosa se observa deslustrada, de superficie irregular y paredes engrosadas que disminuyen su luz.*



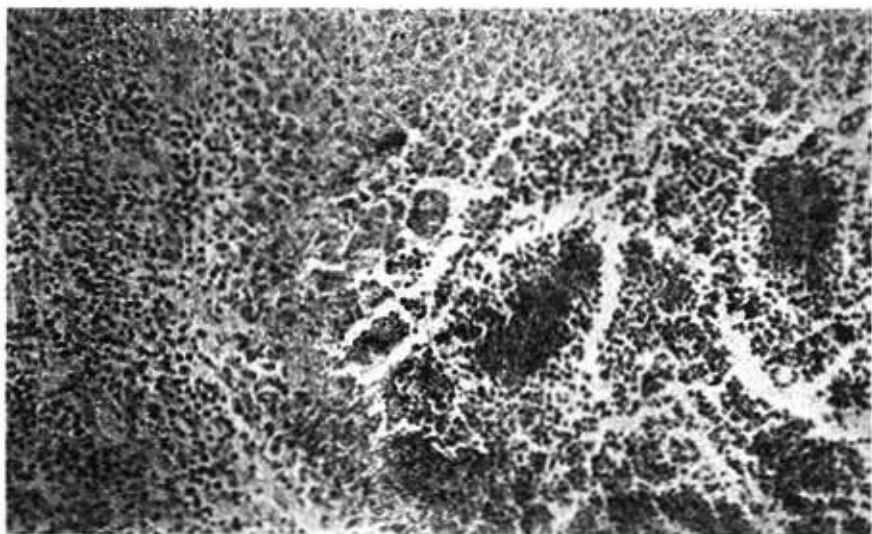
*Figura 8. Vista panorámica a pequeño aumento de un corte histológico de colon: lesión granulomatosa. Area central de necrosis fibrinoide. Reacción periférica a células epiteloideas con células gigantes y linfocitos (coloración hematoxilina-eosina).*

De la revisión por nosotros realizada sólo hemos encontrado dos pacientes que han sobrevivido a esta infestación, los cuales eran de localización nasal, en que el tratamiento fue anfotericin B.<sup>20</sup>

Es de destacar que sólo los casos tratados con anfotericin B sobrevivieron a esta enfermedad, por lo que orientamos que ante esta patología debe ser ésta la droga de elección.

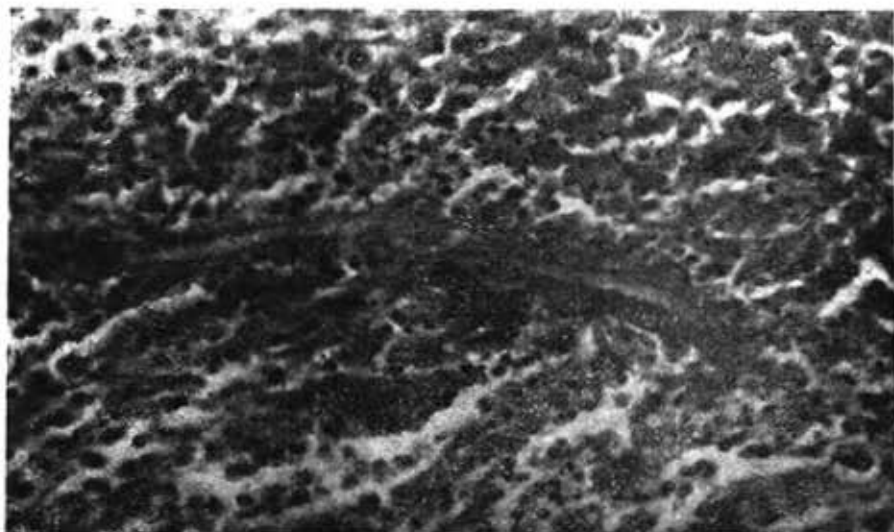


*Figura 9. Mayor aumento del área periférica de la necrosis fibrinoide con proliferación de células epiteloideas (coloración hematoxilina-eosina).*

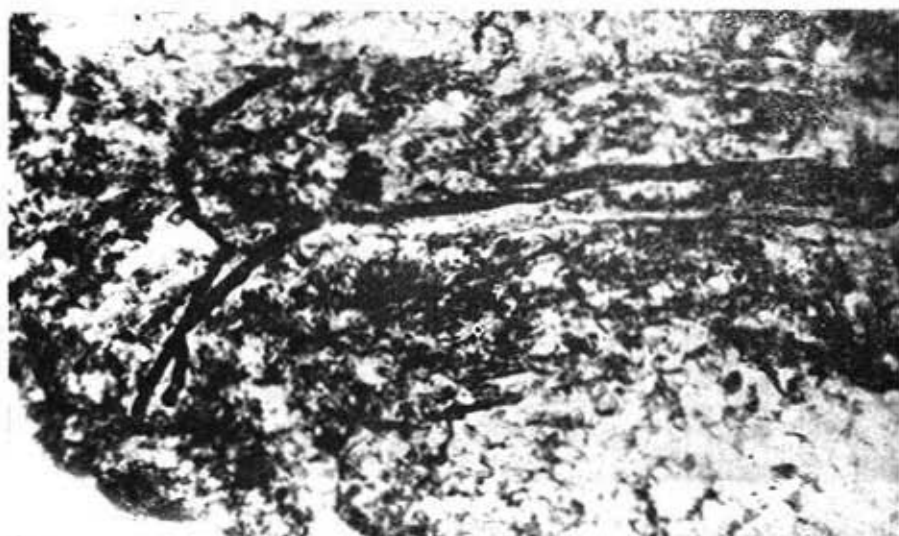


*Figura 10. A pequeño aumento necrosis eosinofílica granular (hematoxilina-eosina).*

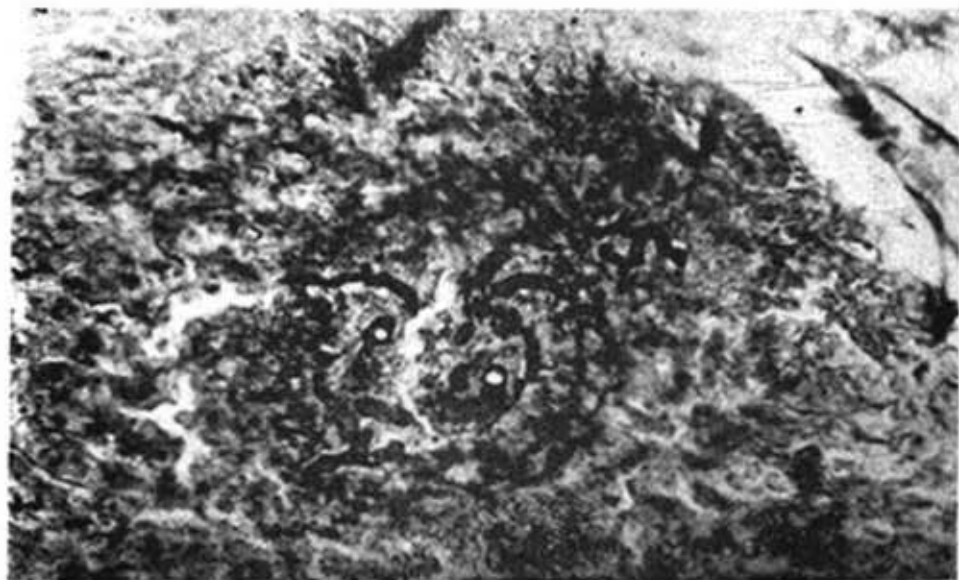




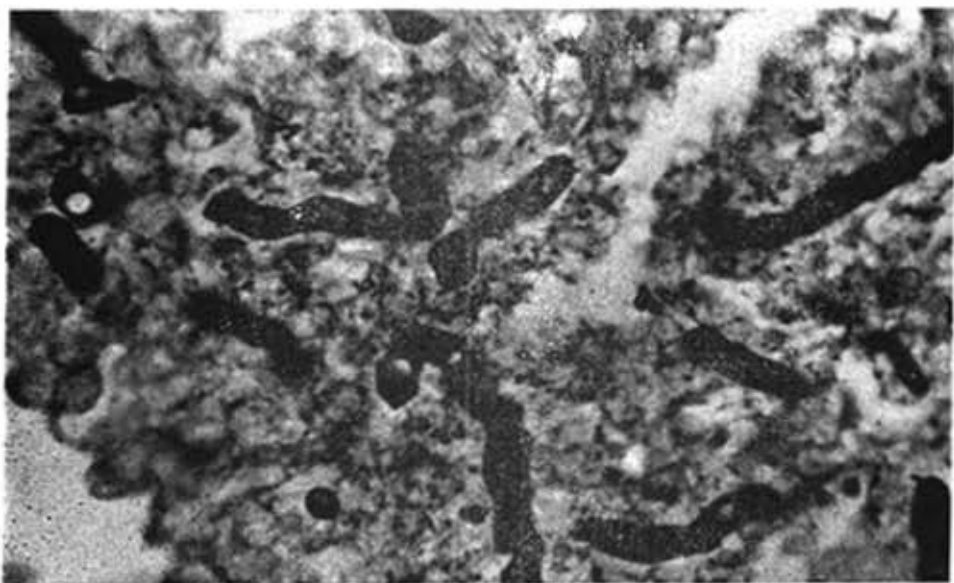
*Figura 11. A gran aumento necrosis eosinofílica granular (coloración hematoxilina-eosina).*



*Figura 12.*



*Figura 12a.*



*Figura 12b.*

*Figuras 12. 12a, 12b. Corte histológico de colon donde se evidencia las hifas de mucorales (coloración plata-metanamina contrastada con Light Green).*

## Reconocimiento

Nuestro agradecimiento a los profesores *Guillermo Hernández Amador*, cirujano del hospital "William Soler" e *Israel Borrajo*, patólogo del hospital

"Calixto García" y al doctor *Luis Villasana*, coloproctólogo del hospital "Calixto García" por su participación en el diagnóstico y tratamiento de esta infrecuente entidad.

## SUMMARY

Blanco Rabassa, E. *Colon cigomicosis. A report of one case.* Rev Cub Ped 48: 3, 1976.

An eleven-year-old boy with colon "cigomicosis" is presented; this is the first case reported in Cuba. The effectiveness of the treatment with amphotericin B as well as the favourable course of the disease are stressed.

## RESUME

Blanco Rabassa, E. et al. *Cigomicosis du colon. Présentation d'un cas.* Rev Cub Ped 48: 3, 1976.

Un cas de "cigomicosis" du colon chez un enfant âgé de 11 ans est présenté, constituant le premier de ce type rapporté à Cuba. On souligne l'efficacité du traitement avec amphotéricine B, ainsi que l'évolution satisfaisante de la maladie.

## РЕЗЮМЕ

Бланко Рабасса Э. "Cigomicosis" ободочной кишки. Представление одного случая. Rev Cub Ped 48:5,1976.

Представили случай "cigomicosis" ободочной кишки у 11 летнего мальчика, случай которого является первым на Кубе. Настаивается на эффективности лечения анфотерицином В и удовлетворительный курс заболевания.

## BIBLIOGRAFIA

1. Clark, R. M. A case of mucormycosis of the duodenum, liver and ceçum. Report of case. *Gastroenterology* 6: 985, 33, 1957.
2. Baker, R. D. Mucormycosis a new disease? *JAMA* 163: 805, 1957.
3. Moore, M. et al. Mucormycosis of the large lowel. *Am J Pathol* 25: 559, 1949.
4. Martin, F. P. et al. Mucormycosis of the central nervous system associated with thrombosis of the external ceratid entery. *S Pediat* 44: 437, 1954.
5. Baker, R. D. et al. Mucormycosis of the digestive tract. *AMA Arch Pathe* 63: 176, 1957.
6. Isaacson, C. and Levin, S. E. Gastrointestinal mucormycosis in infancy. *S Afr Med J* 28: 581, 35, 1961.
7. Neame, P. and Raynor, D. Mucomycosis. A report of 22 cases. *Arch Pathol* 70: 261, 1960.
8. Alvarez, A. A. Granuloma nasal zigomicótico. *Rev Cub Ped* 43: 193, 1971.
9. Harris, J. S. Mucormycosis: Report of case. *Pediatrics* 16: 857, 1955.

Recibido el trabajo: octubre 14, 1975.