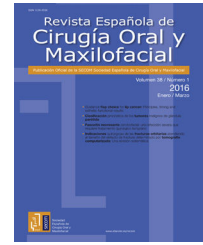




Revista Española de
Cirugía Oral y
Maxilofacial

www.elsevier.es/recom



Página del residente. Solución

Absceso intraparotídeo en contexto de tularemia oculoglandular



Intraparotid abscess in context of oculoglandular tularemia

Carlos Prol*, Ignacio Aguirre, María García-Iruretagoyena y Melanie Azkona

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Universitario Gurutzeta/Cruces, Barakaldo, Vizcaya, España

Introducción

A pesar de no evidenciarse ningún patógeno de nuevo en cultivos y tinciones, se obtuvo serología positiva 1/320 mediante aglutinación directa de inmunoglobulinas totales para *Francisella tularensis*. Es un cocobacilo aerobio gram negativo intracelular muy virulento, considerado como un potencial agente para bioterrorismo. Fue aislado por primera vez en ardillas en 1911, California, nombrado en honor al Dr. Edward Francis¹.

El mecanismo de transmisión más probable del caso es por contacto directo conjuntival, con salpicadura de sangre al despellejar un conejo contaminado. Con diagnóstico de tularemia oculoglandular, se trató inicialmente con ciprofloxacino sin lograr controlar la infección, la gentamicina tuvo que ser suspendida por toxicidad vestibular, y con doxiciclina se obtuvo una respuesta parcial. Finalmente se intervino de parotidectomía superficial izquierda (fig. 1) ampliada con adenomegalias circundantes, y completó 15 días postoperatorio de la tetraciclina. La anatomía patológica informó de varios ganglios linfáticos intraparotídeos con linfadenitis granulomatosa necrosante (fig. 2) con tinciones gram, PAS, plata y Ziehl-Neelsen negativas. La PCR universal de la pieza fue positiva para *Francisella*. En el control postquirúrgico a los 6 meses, la paciente permanece asintomática.

Discusión

Las parotiditis pueden ser causadas por virus, bacterias, hongos, parásitos, protozoos o enfermedades inmunológicas y granulomatosas. Las bacterias más frecuentes son estafilococos y anaerobios. Los mecanismos de patogénesis descritos son la ascensión retrógrada y estasis salival, y como favorecedores bocas sépticas e inmunodepresión. En estadios iniciales suelen responder a antibioterapia, pero cuando se abscesifican se recomienda intervenir para drenaje o sialadenectomía, por riesgo de extensión cervical profunda².

La tularemia es una antropozoonosis transmitida a humanos por picadura de insectos, contacto directo con conejos u otros roedores, inhalación o ingestión de material contaminado. Es más frecuente en el hemisferio norte, y en Europa en los países escandinavos, Turquía y España. La subespecie principal en nuestro medio es el tipo B u *holarctica*³⁻⁶.

En humanos las presentaciones son: ulceroglandular, glandular, orofaríngea, oculoglandular, neumónica y sistémica (tifoidea y séptica). La forma ulceroglandular es la más frecuente en América del Norte, y la orofaríngea en Europa. La oculoglandular, que es de las más raras, constituye aproximadamente un 4% de todos los casos en España⁶. Ante la sospecha diagnóstica, se toman muestras sanguíneas, secreciones respiratorias y raspados-biopsias de lesiones cutáneas

Véase contenido relacionado en DOI: <http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2016.06.002>.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: drprolteijeiro@gmail.com (C. Prol).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2016.06.003>

1130-0558/© 2016 SECOM. 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/>).

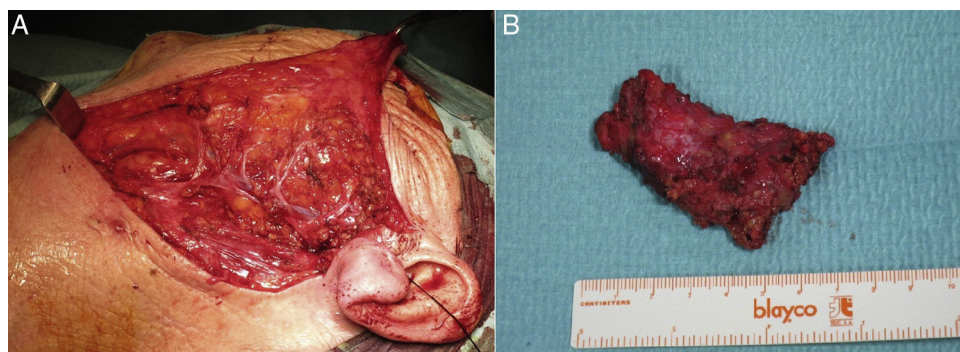


Figura 1 – Fotografías intraoperatorias: A) Lecho de parotidectomía superficial. B) Pieza quirúrgica.

y ganglios linfáticos. El *gold standard* para el diagnóstico son los cultivos, sin embargo, debido a las condiciones especiales de crecimiento requeridas como medios enriquecidos en cisteína, muchas veces son negativos. Por la clínica y métodos serológicos (aglutinación de anticuerpos, enzimáticos, electrotransferencia,...) y moleculares (PCR, electroforesis, ribotipado, secuenciación 16S rDNA,...) es como se suelen enfocar los casos^{3,4}. A nivel histológico forma parte del diagnóstico diferencial de las linfadenitis granulomatosas. Se dividen en no infecciosas, destacando la sarcoidosis y neoplasias linfoproliferativas, y en infecciosas. Estas a su vez en no supurativas como la tuberculosis, y en supurativas, como es nuestro caso o la enfermedad por arañazo de gato. Los granulomas se forman tras varias semanas de infección, con un centro de necrosis caseosa, rodeados de células epitelioides⁷.

En nuestra paciente, con los antecedentes descritos y ante una masa parotídea multiloculada y fistulizada con importante reacción adenopática subyacente, se descarta primero una infección por bacterias convencionales (gram y cultivos negativos), reactivación de tuberculosis (Ziehl y PCR negativos) y recidiva de linfoma (no síntomas B y recuentos hematológicos normales), previo a la sospecha de tularemia. En nuestro medio, debemos tenerla presente ante un cuadro infeccioso ganglionar con manifestaciones dermatológicas, amigdalitis,

faringitis, neumónicos o conjuntivitis que no responde a betalactámicos, ya que en los últimos años está reemergiendo^{4,5}.

Los antibióticos empleados habitualmente son fluorquinolonas, tetraciclinas, aminoglucósidos y cloranfenicol. Por toxicidad, resistencias y recurrencias se están desarrollando ensayos *in vitro* y en animales, que consideran ketólidos, gliciliclinas, nuevas fluorquinolonas, linezolid, antimicrobianos liposomales y peptídicos, inmunomoduladores y anticuerpos específicos. Actualmente no existe vacuna disponible con licencia⁸.

Igual que el nuestro, existen otros casos descritos con mala respuesta a pautas convencionales de antibioterapia, que se han beneficiado de ciclos prolongados de antimicrobianos y cirugía concomitante^{9,10}.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Agradecimientos

Al jefe y todos los adjuntos del Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, y al Dr. Ayman Gaafar Eleraky de Anatomía Patológica del Hospital Universitario Gurutzeta/Cruces, Barakaldo, Vizcaya.

BIBLIOGRAFÍA

1. Oyston PCF. *Francisella tularensis*: Unravelling the secrets of an intracellular pathogen. *J Med Microbiol.* 2008;57:921-30.

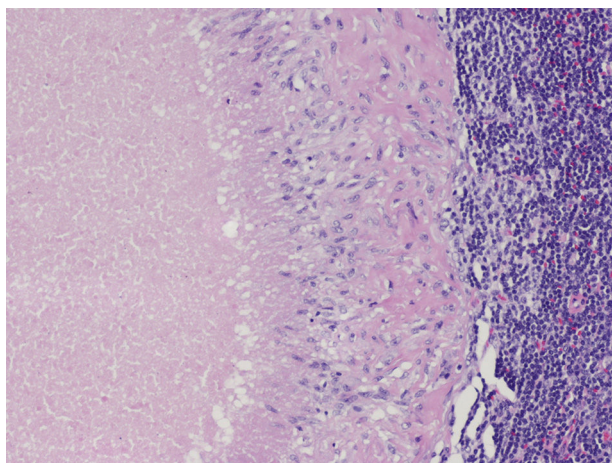


Figura 2 – Linfadenitis granulomatosa necrosante: centro necrótico, corona de células epitelioides y reacción linfocitaria (hematoxilina & eosina x20).

2. Brook I. The bacteriology of salivary gland infections. *Oral Maxillofacial Surg Clin*. 2009;21:269-74.
3. Carvalho CL, Lopes de Carvalho I, Zé-Zé L, Nuncio MS, Duarte EL. Tularaemia: A challenging zoonosis. *Comp Immunol Microbiol Infect Dis*. 2014;37:85-96.
4. Hestvik G, Warns-Petit E, Smith LA, Fox NJ, Uhlhorn H, Artois M, et al. The status of tularemia in Europe in a one-health context: A review. *Epidemiol Infect*. 2015;143:2137-60.
5. Akalin H, Helvacı S, Gedikoğlu S. Re-emergence of tularemia in Turkey. *Int J Infect Dis*. 2009;13:547-51.
6. Pérez-Castrillón JL, Bachiller-Luque P, Martín-Luquero M, Mena-Martín FJ, Herreros V. Tularemia epidemic in northwestern Spain: Clinical description and therapeutic response. *Clin Infect Dis*. 2001;33:573-6.
7. Asamo S. Granulomatosis lymphadenitis. *J Clin Exp Hematopathol*. 2012;52:1-16.
8. Boisset S, Caspar Y, Sutura V, Maurin M. New therapeutic approaches for treatment of tularaemia: A review. *Front Cell Infect Microbiol*. 2014;4, 40.
9. Karakas A, Coskun O, Artuk C, Savasci U, Cem Gul H, Mert G, et al. Oropharyngeal tularemia cases admitted to a military hospital in Ankara. *J Infect Dev Ctries*. 2014;8:994-9.
10. Kosker M, Sener D, Kilic O, Akil F, Yilmaz M, Ozturk O, et al. A case of oculoglandular tularemia resistant to medical treatment. *Scand J Infect Dis*. 2013;45:725-7. <http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2016.06.003>

Sarcoidosis con hipertrofia bilateral parotídea como primer síntoma



Sarcoidosis with bilateral parotid hypertrophy as the first symptom

Víctor Hidalgo-López*, Mikel Ramos-Murquialday, Carlos Alberto Salcedo-Gil, Paola Cristina Sambo-Salas y José Ignacio Iriarte-Otarbe

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Universitari Son Espases, Palma de Mallorca, Islas Baleares, España

Resolución del caso

La paciente no presentó xerostomía ni xeroftalmia. No refirió dolor, ni tumefacción relacionada con las comidas. No salida de material purulento por Stenon. No presentaba factores de riesgo para VIH, ni cumplía el perfil de paciente alcohólico o desnutrido. Se descartó el origen metabólico/obstructivo como causa principal.

la enzima convertidora de la angiotensina Con la información clínica, las pruebas de imágenes y el resultado de la PAAF, se estableció como orientación diagnóstica principal la sarcoidosis.

Para la confirmación diagnóstica se optó por realizar una analítica para valorar la enzima convertidora de la angiotensina (ECA), que resultó ser el doble de los parámetros de normalidad. A su vez, se realizó una biopsia abierta para poder confirmar el diagnóstico de sarcoidosis, la cual reveló múltiples granulomas no caseificantes, con células gigantes multinucleadas, rodeada por los linfocitos, lo cual concuerda con el diagnóstico de sarcoidosis. Las tinciones especiales para ácido-alcohol resistentes y hongos fueron negativas.

Siguiendo la recomendaciones de la literatura publicada que abogan por un tratamiento conservador con corticoides

y metotrexato, la paciente respondió favorablemente a dicho tratamiento, pudiéndose apreciar la desaparición total de las masas parotídeas (figs. 1 y 2).

Discusión

La sarcoidosis es una enfermedad granulomatosa multisistémica, de etiología desconocida, con afectación de cualquier órgano o sistema. La prevalencia de sarcoidosis se estima entre 10-20 pacientes por cada 100.000 habitantes¹. Afecta comúnmente a adultos jóvenes de ambos sexos, aunque es ligeramente más frecuente entre las mujeres. Hay 2 picos de incidencia: en el grupo de edad entre 20-29 años y en mujeres de más de 50 años². Es una enfermedad que afecta a todas las poblaciones, con una incidencia media de 16,5/100.000 en varones y 19/100.000 en mujeres. Es más frecuente en los países del Norte de Europa, siendo la incidencia anual más alta en Suecia e Islandia (60 por cada 100.000 habitantes)³.

La revisión de la literatura muestra que la implicación de la glándula parotídea es rara en esta enfermedad. Las glándulas salivales están involucradas en el 6% de los casos de sarcoidosis reportados. El 92% lo realiza en forma de inflamación ipsilateral o bilateral indolora, y un 30% en forma de xerostomía⁴.

Véase contenido relacionado en DOI: <http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2016.05.008>.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: doctorvictorhidalgo@gmail.com (V. Hidalgo-López).