

macroscópico, anemia o incluso disfagia<sup>5</sup>. La cápsula endoscópica puede ser de gran ayuda en el diagnóstico, aunque su diagnóstico final es histológico; dicha lesión consiste en una proliferación de capilares con edema estromal e infiltrado mixto inflamatorio<sup>7</sup>. Aunque la polipectomía endoscópica, la embolización y el tratamiento con láser han sido descritos, el tratamiento quirúrgico puede ser requerido<sup>8,9</sup> dado que a menudo el sangrado es repetido y profuso; consiguiendo con ello evitar las recurrencias.

## Financiación

Este artículo no cuenta con financiación.

## Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

## Bibliografía

- Mills SE, Cooper PH, Fechner RE. Lobular capillary hemangioma: The underlying lesion of pyogenic granuloma. A study of 73 cases from the oral and nasal mucous membranes. *Am J Surg Pathol.* 1980;4:470.
- Giblin AV, Clover AJ, Athanassopoulos A, Budny PG. Pyogenic granuloma - the quest for optimum treatment: Audit of treatment of 408 cases. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2007;60:1030.
- Harris MN, Desai R, Chuang TY, Hood AF, Mirowski GW. Lobular capillary hemangiomas: An epidemiologic report, with emphasis on cutaneous lesions. *J Am Acad Dermatol.* 2000;42:1012.
- Moffatt DC, Warwryko P, Singh H. Pyogenic granuloma: An unusual cause of massive gastrointestinal bleeding from the small bowel. *Can J Gastroenterol.* 2009;23:261.
- Pennazio M, Spada C, Eliakim R, Keuchel M, May A, Mulder CJ, et al. Small-bowel capsule endoscopy and device-assisted enteroscopy for diagnosis and treatment of smallbowel disorders: European Society of Gastrointestinal Endoscopy (ESGE) Clinical Guideline 2015.
- Pons Beltrán V. Obscure gastrointestinal bleeding and obscure capsule. May we switch on any lights? *Rev Esp Enferm Dig.* 2015;107:711-3.
- Kuzu I, Bicknell R, Harris AL, Jones M, Gatter KC, Mason DY. Heterogeneity of vascular endothelial cells with relevance to diagnosis of vascular tumours. *J Clin Pathol.* 1992;45:143.
- Kusakabe A, Kato H, Hayashi K, Igami T, Hasegawa H, Tsuzuki T. Pyogenic granuloma of the stomach successfully treated by endoscopic resection after transarterial embolization of the feeding artery. *J Gastroenterol.* 2005;40:530-5.
- Hirakawa K, Aoyagi K, Yao T, Hizawa K, Kido H, Fujishima M. A case of pyogenic granuloma in the duodenum: Successful treatment by endoscopic snare polypectomy. *Gastrointest Endosc.* 1998;47:538-40.

Marta Magaz Martínez\*, José Luis Martínez Porras, César Barrios y Luis Abreu

*Hospital Universitario Puerta de Hierro-Majadahonda, Majadahonda, Madrid, España*

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [martamagazm@gmail.com](mailto:martamagazm@gmail.com) (M. Magaz Martínez).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2016.04.013>  
0210-5705/

© 2016 Elsevier España, S.L.U., AEEH y AEG. Todos los derechos reservados.

## Primer caso clínico de actinomicosis esofágica en un paciente con esofagitis eosinofílica activa

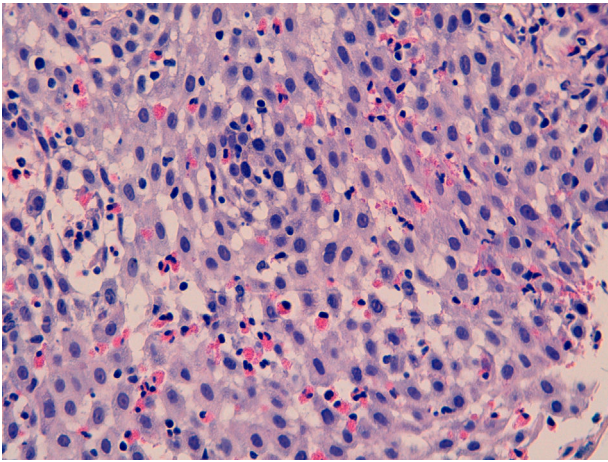


### First case report of oesophageal actinomycosis in a patient with active eosinophilic oesophagitis

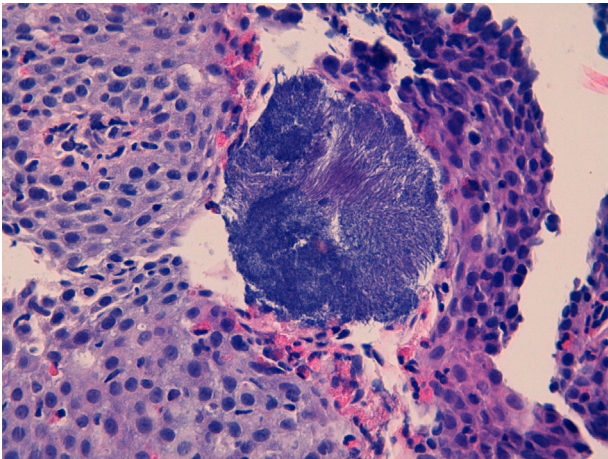
Los actinomicetos son bacterias Gram-positivas y anaerobias, que forman parte de la flora habitual del tracto digestivo, árbol bronquial y aparato genital femenino. A pesar de esto, en ocasiones actúan como patógenos, siendo habituales las infecciones crónicas cervicofaciales supurativas. La disrupción de la barrera mucosa puede favorecer la penetración del microorganismo en cualquier órgano de la anatomía<sup>1,2</sup>. La afectación esofágica es infrecuente y suele aparecer en sujetos inmunosuprimidos, aunque se ha descrito igualmente en personas sin alteraciones inmunológicas conocidas<sup>3</sup>. En otros casos se encuentran otras condiciones que predisponen a su aparición como el alcoholismo, la desnutrición, la diabetes mellitus o la enfermedad pulmonar crónica<sup>4</sup>.

Describimos el caso de un paciente de 30 años valorado por disfagia para sólidos. Solo tenía antecedentes de asma alérgico e hiperuricemia, y además era fumador activo. En años previos había recibido budesonida inhalada 200-400 µg/día durante periodos de hasta 2 años seguidos. Este tratamiento se había suspendido hacía más de 3 años, y actualmente solo usaba terbutalina inhalada a demanda. Trabajaba en el mantenimiento de conductos de ventilación. La exploración física no mostraba alteraciones. Análíticamente tampoco había alteraciones relevantes. Se realizó una gastroscopia en la que se observaron estriaciones finas longitudinales, así como un ligero anillado en su tercio distal, todo ello sugestivo de esofagitis eosinofílica. Presentaba, además, una pequeña hernia de hiato por deslizamiento. En la biopsia se observaban hallazgos compatibles con esofagitis eosinofílica (> 20 eosinófilos por campo de gran aumento [Eo/CGA]) además de colonias de gérmenes tipo actinomicetos en superficie (figs. 1 y 2). Fue tratado con doxiciclina 100 mg/12 h durante 4 semanas. Se descartaron inmunodeficiencias asociadas con normalidad de las inmunoglobulinas, hemograma, anticuerpos antinucleares, anticuerpos anti-citoplasma de neutrófilos, C3/C4 y serología de VIH negativa.

Tras el tratamiento antibiótico presentó clara mejoría clínica de la disfagia, aunque sin resolución completa de



**Figura 1** Mucosa esofágica con un epitelio escamoso con presencia de infiltrado de eosinófilos (> 20 eosinófilos por campo de gran aumento).



**Figura 2** Epitelio esofágico con infiltrado eosinofílico y presencia en superficie de colonias de gérmenes tipo actinomicas.

los síntomas. En la gastroscopia realizada 5 meses después persistían los signos endoscópicos de esofagitis eosinofílica con presencia de anillos concéntricos y exudados blanquecinos. La biopsia confirmó su presencia (> 20 Eo/CGA) y sin objetivar colonias de actinomicas. El estudio alérgico reveló únicamente positividad para neumoalérgenos (ácaros, gramíneas, *plantago* y gato), sin detectar alergias alimentarias. Fue tratado con omeprazol 20 mg/12 h durante 8 semanas, y solución de fluticasona deglutida 400 µg/12 h durante un mes, disminuyendo a 400 µg al día durante otro mes. Ante la ausencia de respuesta se cambió a fluticasona inhalada 500 µg/12 h durante 8 semanas. Tras el tratamiento no se comprobó la presencia de remisión histológica. A pesar de una mejoría clínica con el tratamiento, ha presentado episodios aislados de disfagia, autolimitados, por lo que se realizó una nueva exploración endoscópica un año después. Se observaron, entonces, signos endoscópicos de esofagitis eosinofílica (exudado blanquecino y estrías longitudinales), persistiendo en la biopsia el aumento de eosinófilos (> 15 Eo/CGA) característico de este trastorno. Ante la ausencia de mejoría, a pesar del tratamiento con

inhibidores de bomba de protones y corticoides tópicos, se ha iniciado dieta de exclusión empírica.

Describimos el primer caso de actinomicosis esofágica asociada a esofagitis eosinofílica. Se han descrito otras infecciones en estos pacientes como la *cándida*, principalmente tras el tratamiento con corticoides, y el herpes simple<sup>5,6</sup>. La actinomicosis esofágica es un trastorno raro, pero que debe considerarse dentro del diagnóstico diferencial de las esofagitis infecciosas. El *A. israelii* es el más frecuente en humanos, aunque existen otras especies (*A. naeslundii*, *A. viscosus*, *A. odontolyticus* y *A. bovis*)<sup>1,2,4</sup>. Tienen en general un bajo potencial patogénico, aunque cualquier disrupción mucosa contribuye al desarrollo de la infección<sup>1,2</sup>. Es habitual encontrarla en sujetos inmunosuprimidos o con procesos neoplásicos, siendo rara en inmunocompetentes<sup>3,7</sup>. En sujetos inmunocompetentes puede que ciertas enfermedades predispongan a su desarrollo e incluso se ha postulado el papel de la hernia de hiato en su patogenia<sup>3</sup>. La clínica más frecuente es la disfagia y la odinofagia. Radiológicamente puede observarse una afectación progresiva en profundidad de los tejidos<sup>8</sup>. Los hallazgos en los estudios de imagen suelen mostrar hallazgos inespecíficos, aunque contribuyen a detectar complicaciones asociadas como fístulas<sup>8</sup>. El diagnóstico consiste en la demostración del microorganismo en las biopsias o cultivos. El estudio histológico suele revelar además los típicos gránulos de sulfuro. El cultivo tiene poca sensibilidad y requiere un largo tiempo de incubación en medios enriquecidos. El tratamiento empírico habitual consiste en penicilina G durante un tiempo prolongado. Es posible usar también tetraciclinas, eritromicina o clindamicina.

La presencia de actinomicosis esofágica en un paciente con esofagitis eosinofílica no se había descrito previamente. Además de ocurrir en un sujeto inmunocompetente, no existían disrupciones macroscópicas de la mucosa que favoreciesen la infección por actinomicas. No obstante, en la esofagitis eosinofílica activa es conocido que existe una alteración de la barrera epitelial además de la proliferación inflamatoria<sup>9,10</sup>. Por otro lado, es posible que los trastornos inmunológicos y motores esofágicos asociados a este trastorno hayan contribuido a la sobreinfección por este microorganismo. El tratamiento prolongado con corticoides también puede haber alterado la microbiota oral y contribuir a la proliferación de actinomicas. No obstante, se desconoce si la esofagitis eosinofílica per se predispone a un mayor riesgo de infecciones locales. Dado que se trata de la primera descripción de esta asociación entre la esofagitis eosinofílica y la actinomicosis esofágica, se debe vigilar la aparición de nuevos casos para delimitar con exactitud los factores de riesgo, bien inherentes a la enfermedad o a su tratamiento con corticoides, que puedan predisponer a la infección local por *Actinomyces*.

## Bibliografía

1. Burden P. Actinomycosis. *J Infect.* 1989;19:95–9.
2. Wong VK, Turmezei TD, Weston VC. Actinomycosis. *BMJ.* 2011;343:d6099.
3. Korkmaz H, Kutluana U, Bugdaci MS, Kucukosmanoglu I. A rare presentation of esophageal actinomycosis in an immunocompetent patient. *Endoscopy.* 2013;45 Suppl 2:E181–2.

4. Valour F, Sénéchal A, Dupieux C, Karsenty J, Lustig S, Breton P, et al. Actinomycosis: Etiology, clinical features, diagnosis, treatment, and management. *Infect Drug Resist.* 2014;7:183–97.
  5. Liacouras CA, Furuta GT, Hirano I, Atkins D, Attwood SE, Bonis PA. Eosinophilic esophagitis: Updated consensus recommendations for children and adults. *J Allergy Clin Immunol.* 2011;128:2–3.
  6. Machicado JD, Younes M, Wolf DS. An unusual cause of odynophagia in a patient with eosinophilic esophagitis. *Gastroenterology.* 2014;147:37–8.
  7. Kim HS, Cheon JW, Kim MS, Jung CK, Kim KR, Choi JW, et al. A case of esophageal actinomycosis in a patient with normal immunity. *Korean J Gastroenterol.* 2013;61:93–6.
  8. Welling RD, Cardona DM, Thompson WM. Esophageal actinomycosis: A case report and review of radiographic findings. *J Radiol Case Rep.* 2009;3:44–8.
  9. Katzka DA, Ravi K, Geno DM, Smyrk TC, Iyer PG, Alexander JA, et al. Endoscopic mucosal impedance measurements correlate with eosinophilia and dilation of intercellular spaces in patients with eosinophilic esophagitis. *Clin Gastroenterol Hepatol.* 2015;13, 1242–8.e1.
  10. Simon D, Radonjic-Hösl S, Straumann A, Yousefi S, Simon HU. Active eosinophilic esophagitis is characterized by epithelial barrier defects and eosinophil extracellular trap formation. *Allergy.* 2015;70:443–52.
- Iago Rodríguez-Lago<sup>a,\*</sup>, Ángel Calderón<sup>b</sup>, Juan Cazallas<sup>c</sup>, María Eulalia Camino<sup>d</sup>, Inmaculada Barredo<sup>e</sup> y José Luis Cabriada<sup>a</sup>
- <sup>a</sup> Servicio de Digestivo, Hospital de Galdakao, Usansolo, Vizcaya, España  
<sup>b</sup> Servicio de Digestivo, Hospital Universitario de Basurto, Bilbao, Vizcaya, España  
<sup>c</sup> Servicio de Enfermedades Infecciosas, Hospital de Galdakao, Usansolo, Vizcaya, España  
<sup>d</sup> Servicio de Alergología, Hospital de Galdakao, Usansolo, Vizcaya, España  
<sup>e</sup> Servicio de Anatomía Patológica, Hospital de Galdakao, Usansolo, Vizcaya, España
- \* Autor para correspondencia.  
 Correo electrónico: [iago.r.lago@gmail.com](mailto:iago.r.lago@gmail.com)  
 (I. Rodríguez-Lago).
- <http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2016.04.012>  
 0210-5705/  
 © 2016 Elsevier España, S.L.U., AEEH y AEG. Todos los derechos reservados.

## Colitis cystica profunda: A report of 2 cases with a 15-year follow-up



## Colitis quística profunda: informe de 2 casos con 15 años de seguimiento

Colitis cystica profunda is a rare benign condition characterized by mucoid cysts in the colonic submucosal layer. The most frequent form is localized, typically located on the anterior rectal wall 6–7 cm from the anal verge, although segmental and diffuse forms affecting only one part of the colon or the whole colon have been documented. The disease usually presents as a polypoid mass in the rectum associated with bloody or mucoid diarrhea and rectal tenesmus. This clinical presentation associated with the microscopic finding of mucus cysts in the submucosa has led to the mistaken diagnosis of adenocarcinoma and unnecessarily radical operative procedures. Attention to the completely normal cellular architecture provides the key to the correct diagnosis.

We here report two cases of colitis cystica profunda in one of which the initial misdiagnosis of rectosigmoid neoplasm caused unnecessary anterior resection of the rectum. In the other case, treatment with systemic and topical corticosteroids was necessary to control rectal bleeding. Both patients have remained asymptomatic for 7 and 10 years, respectively, after successful response to treatment with mesalamine and corticosteroid therapy.

### Case 1

A 45-year-old man with family history of ulcerative colitis (one brother) was admitted in 1999 because of post-

defecation rectal bleeding, rectal tenesmus and mucus discharge of one month's duration. He was a current smoker (30 pack-years) and reported daily alcohol consumption of 40 g of ethanol. A firm rectal mass was palpated about 6 cm from the anal verge. Barium enema showed a large infiltrating stenotic lesion with an extraluminal mass compatible with rectosigmoid neoplasm. A colonoscopy was performed revealing a 15-cm lobulated and ulcerated mass at 7 cm from the anal verge suggestive of malignant neoplasm affecting the rectosigmoid area. Biopsies showed inflammatory changes without tumor infiltration. The abdominal computerized tomography (CT) showed rectosigmoid wall thickening of malignant appearance without lymph nodes or distant metastasis. A tentative diagnosis of rectal neoplasm was established and the patient underwent a low anterior resection and prophylactic appendectomy. Histopathological examination of the resected specimen (Figs. 1 and 2) showed numerous herniations of glands into the submucosa of different sizes and absence of neoplastic changes in columnar epithelium. Also, there were areas with ulcerative fissures and abscess-like fistulas, with abundant lymphoid tissue and fibrosis suggestive of Crohn's disease. Lymph nodes and the vermiform appendix did not show relevant changes. The postoperative course was uneventful but the patient began to have fecal incontinence (gas and stools) shortly after hospital discharge. A severe hypotonic internal anal sphincter confirmed by anorectal manometry and endoscopic ultrasonography of the anal canal was found. The episodes of fecal leakage decreased with biofeedback therapy.

One year after surgery, the patient was referred to our unit of inflammatory bowel disease due to reappearance of rectal bleeding, diarrhea with mucus in stools and anal pain. The pelvic magnetic resonance imaging (MRI) was normal. A new colonoscopy showed hyperemia at the level of the anastomosis but superficial biopsies of the mucosa