



clínica e investigación en ginecología y obstetricia

www.elsevier.es/gine



CASO CLÍNICO

Mastitis granulomatosa idiopática complicada con absceso de mama producido por *Gordonia sputi*, caso clínico



Á.M. González Aranda*, S. Álvarez Sánchez, F. Arnanz Velasco, E. Martínez Gómez, N. Garrido Sánchez, M. Linares Rufo, A. Santana Costa y Á. Zapico Goñi

Servicio de Ginecología y Obstetricia, Hospital Universitario Príncipe de Asturias, Facultad de Medicina, Universidad de Alcalá, Alcalá de Henares (Madrid), España

Recibido el 3 de octubre de 2021; aceptado el 19 de noviembre de 2021
Disponibile en Internet el 19 de enero de 2022

PALABRAS CLAVE

Mastitis granulomatosa idiopática;
Gordonia spp.;
Gordonia sputi;
Absceso de mama

Resumen La mastitis granulomatosa idiopática es una entidad rara, benigna y crónica de causa desconocida que afecta a la mama. Es un diagnóstico de exclusión. Se deben descartar, entre otras etiologías, la tuberculosis, las infecciones, la sarcoidosis y otras enfermedades autoinmunes, como la arteritis de células gigantes. Los principales retos que plantea esta entidad son su diagnóstico diferencial con enfermedad maligna y su tratamiento. La afectación mamaria es anecdótica y ha sido solo reportada en relación con prótesis mamarias. Presentamos el caso de una paciente diagnosticada de mastitis granulomatosa idiopática complicada con un absceso de mama por *Gordonia sputi*.

© 2021 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Idiopathic granulomatous mastitis;
Gordonia spp.;
Gordonia sputi;
Breast abscess

Idiopathic granulomatous mastitis complicated with a breast abscess caused by *Gordonia sputi*, a case report

Abstract Idiopathic granulomatous mastitis is a rare, benign, chronic entity of unknown cause affecting the breast. It is a diagnosis of exclusion. Among other aetiologies, tuberculosis, infections, sarcoidosis, and other autoimmune diseases such as giant cell arteritis must be ruled out. The main challenges posed by this entity are its differential diagnosis with malignant pathology and its treatment.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: Angelmg92@gmail.com (Á.M. González Aranda).

Gordonia spp. are a group of emerging pathogens that are mainly associated with infections associated with medical devices, mainly catheters. Breast involvement is anecdotal and has only been reported in relation to breast prostheses.

We present the case of a patient diagnosed with idiopathic granulomatous mastitis complicated with a breast abscess due to *Gordonia sputi*.

© 2021 Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

La mastitis granulomatosa idiopática (MGI) es una entidad rara, benigna y crónica de causa desconocida que afecta a la mama^{1,2}. Es un diagnóstico de exclusión. Se deben descartar, entre otras etiologías, la tuberculosis, las infecciones, la sarcoidosis y otras enfermedades autoinmunes, como la arteritis de células gigantes^{1,2}. Los principales retos que plantea esta entidad son su diagnóstico diferencial con enfermedad maligna y su tratamiento.

Gordonia spp. son un grupo de patógenos emergentes que se relacionan principalmente con infecciones asociadas con dispositivos médicos, sobre todo con catéteres³. La afectación mamaria es anecdótica y ha sido solo reportada en relación con prótesis mamarias⁴.

Presentamos el caso de una paciente diagnosticada de MGI complicada con un absceso de mama por *Gordonia sputi*.

Caso clínico

Presentamos el caso de una mujer de 44 años de origen latinoamericano con antecedentes personales de gastritis crónica de 2 años de evolución en tratamiento con omeprazol, intervenida de apendicectomía y de colecistectomía y que, como antecedente familiar relevante, tenía una tía materna con cáncer de mama diagnosticado a los 62 años. Como antecedentes ginecológicos y obstétricos mencionó menarquia a los 13 años, 4 partos normales con lactancia en todos ellos de 12 meses sin complicaciones y tipo menstrual 7/25.

La paciente acudió al servicio de urgencias por dolor en mama izquierda de 15 días de evolución y aparición 7 días después de masa en la misma mama. A la exploración, se objetivó en el cuadrante inferior interno de la mama izquierda, próximo a la aréola, una tumoración de 5 × 4 cm, no adherida a piel ni a planos profundos. No se palparon adenopatías axilares. La exploración ginecológica y el resto de las exploraciones fueron normales. Se realizó estudio de imagen mediante mamografía, que resultó inconcluso debido a la densidad de la mama de la paciente (fig. 1). Se completó el estudio con ecografía, en la que se visualizó masa en el cuadrante inferior interno de 5 cm con bordes mal definidos, microlobulada y con características compatibles con malignidad (BIRADS 5) (fig. 2). No se observó engrosamiento cutáneo. En la ecografía axilar no se apreciaron adenopatías sospechosas. Se realizó una biopsia con aguja gruesa (BAG) de la

masa y se obtuvieron varios cilindros de tejido mamario con infiltrado linfoplasmocitario moderado-intenso. Con el estudio de inmunohistoquímica se excluyó la malignidad en el material remitido. Se observaron estructuras aisladas compatibles con granulomas, no claramente tuberculoide-sarcoideos, en los que se observaron histiocitos. La técnica de Ziehl fue negativa. Ante estos hallazgos, se hizo una biopsia, con tomas para estudio histológico y microbiológico (micobacterias y hongos).

Dada la sospecha de mastitis granulomatosa, se inició estudio para descartar tuberculosis y sarcoidosis como posibles etiologías. Se realizó un Mantoux, que fue negativo, y una radiografía de tórax, que fue normal. Se inició tratamiento médico con corticoides (metilprednisolona a dosis de 30 mg al día). Ante la posibilidad de enfermedad autoinmune asociada, se solicitó interconsulta al servicio de reumatología. Se hizo estudio de autoanticuerpos y PET-TAC. Con los estudios se descartaron las etiologías infecciosa y autoinmune. En la PET-TAC no se observó actividad fuera de la mama izquierda. El diagnóstico de sospecha fue mastitis granulomatosa idiopática.

Tras la BAG, la paciente desarrolló un trayecto fistuloso no complicado en el cuadrante inferior izquierdo, secundario a la biopsia. Se observó reducción de la masa en dicho cuadrante de la mama izquierda, por lo que se continuó con el tratamiento con corticoides sin modificar la dosis. Al poco, desarrolló una zona eritematosa en cuadrante superior externo de 3 × 3 cm, compatible con mastitis incipiente. Se instauró una pauta empírica de antibiótico con amoxicilina-clavulánico (875 mg/125 mg cada 8 h).

La evolución fue favorable, con una reducción del tamaño de la masa en el cuadrante inferior izquierdo de la mama izquierda. Se palpaba, subyacente a ella, una zona empastada, ligeramente fluctuante de 2 × 2 cm. En la ecografía no se visualizó claramente una colección drenable. Se realizó una punción-aspiración con aguja fina y se obtuvo escaso material purulento, que se remitió para estudio microbiológico (aerobios, anaerobios y *Corynebacterium*). Se decidió cambiar el tratamiento antibiótico a linezolid para cubrir *Corynebacterium* spp. Se mantuvo la misma pauta de corticoterapia, dada la buena respuesta. Tras una semana, la masa continuó disminuyendo de tamaño, por lo que se prolongó el tratamiento corticoideo. También se observó reducción en la zona eritematosa del cuadrante superior externo de la mama izquierda, con persistencia de induración subyacente, por lo que se decidió mantener el tratamiento con linezolid. A los 7 días, la exploración puso

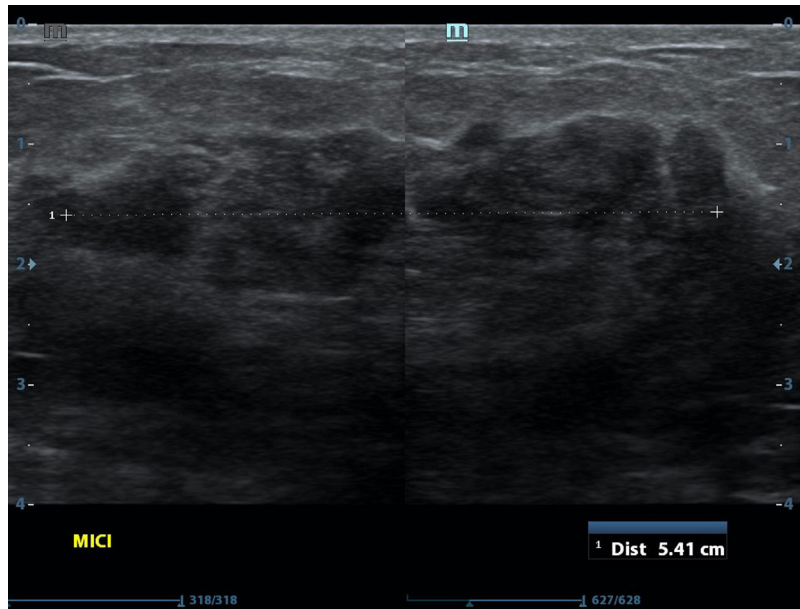


Figura 1 Mamografía en proyección cráneo-caudal (A) y oblicua mediolateral (B). No se visualiza claramente la masa por mamas densas.

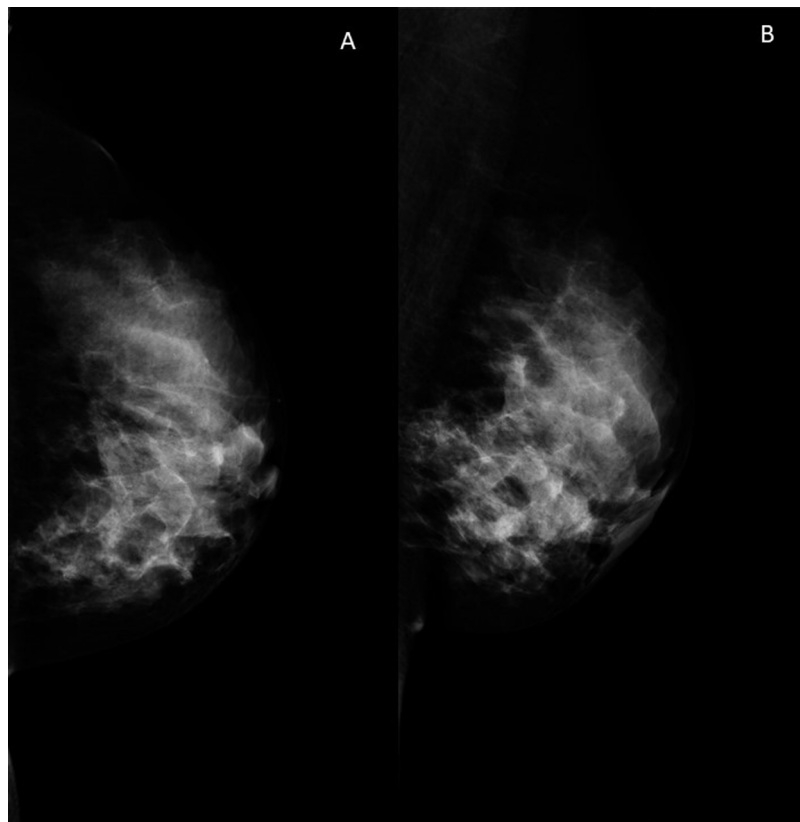


Figura 2 Ecografía complementaria tras aparición de masa en mama izquierda. Se visualiza masa heterogénea de 54 mm con bordes mal delimitados, compatible con malignidad (BIRADS 5).

de manifiesto en la mama izquierda una masa indurada que ocupaba todo el cuadrante inferior externo, con una masa escasamente fluctuante cerca del surco mamario, con otras 2 zonas induradas en la unión de los cuadrantes externos.

En el cultivo se aisló *Gordonia sputti*, por lo que se añadió ciprofloxacino. Se solicitó de nuevo una ecografía, en la que se evidenció una colección fluctuante subcutánea subareolar, que se drenó casi en su totalidad y se obtuvieron 16 ml



Figura 3 Resolución de cuadro tras cambio de antibioterapia. Se puede visualizar en el cuadrante inferior externo la resolución de absceso.

de material purulento. Se remitió de nuevo el material para estudio microbiológico. Se mantuvo el mismo tratamiento con linezolid y metilprednisolona.

En la siguiente revisión, persistía la zona eritematosa en el cuadrante superior externo, con zona ligeramente fluctuante. El resultado del estudio microbiológico drenado la semana anterior fue negativo. En la nueva ecografía, se observó persistencia de colección líquida de $3,5 \times 8$ mm, que se drenó. Se suspendió la antibioterapia y se redujo la dosis de metilprednisolona a 20mg al día.

Tras un mes (76 días tras el diagnóstico), acudió a revisión, en la que se objetivó la desaparición de la masa de la mama del cuadrante inferior izquierdo, así como del trayecto fistuloso (fig. 3). En el cuadrante inferior externo solo se evidenció un ligero eritema, sin palpar ninguna colección subyacente. Se continuó con la corticoterapia durante 3 meses más.

Discusión

La MGI es una enfermedad inflamatoria de etiología desconocida¹ que supone un reto diagnóstico. Por un lado, se debe distinguir entre enfermedad mamaria maligna, principalmente carcinoma de mama y carcinoma inflamatorio. Por otro lado, hay que descartar otro tipo de mastitis inespecíficas y enfermedades inflamatorias crónicas (granulomatosis con poliangeitis, sarcoidosis, infección por *Corynebacterium*, tuberculosis).

La MGI fue descrita por Kessler y Wolloch en 1972¹. Es una enfermedad rara; algunos estudios han estimado que entre el 0,44% y el 1,6% de las biopsias de mama cumplen criterios de MGI¹, que es más prevalente en mujeres en edad reproductiva, multíparas, asiáticas o hispanas¹.

Se caracteriza por la presencia de granulomas no caseificantes con formación de microabscesos confinados en el lóbulo de la mama^{1,2}. Clínicamente se suele presentar como una masa sólida bien definida en el cuadrante superior externo, en una mujer multípara, entre 30 y 45 años. La masa suele ser unilateral y puede asociar eritema subyacente, piel de naranja o retracción del pezón. Las recurrencias son frecuentes^{1,2}: se han descrito hasta en el 50% de las pacientes⁵. La duración del cuadro clínico suele

ser menor de 12 meses. Se han descrito casos graves, con ulceración y desarrollo de fistulas. Se puede encontrar afectación linfática en la zona axilar hasta en un 23% de los casos^{1,2}.

Radiológicamente, no existen hallazgos patognomónicos. La mamografía suele mostrar un parénquima heterogéneo con asimetría focal^{1,6}. También se puede visualizar afectación cutánea, con aumento de la piel, y adenopatías axilares^{1,6}. Otras alteraciones simulan un absceso de mama e, incluso, un carcinoma de mama. Ecográficamente se suele visualizar una masa hipocogénica irregular, con un tamaño medio de 39 mm, y hasta en un 25% de los casos se visualiza afectación ganglionar axilar^{1,6}. La RMN no suele aportar ventajas diagnósticas frente a la ecografía y a la mamografía; sin embargo, algunos autores la proponen para la monitorización de la respuesta al tratamiento⁶.

El tratamiento de la MGI es controvertido, dada la rareza de esta entidad^{1,2,6}. Se ha propuesto desde el manejo expectante, la antibioterapia y la corticoterapia, hasta el manejo quirúrgico, que incluye desde escisiones locales hasta la mastectomía^{2,6}. La antibioterapia en la MGI no aporta ningún beneficio^{2,6}. La tendencia actual es utilizar corticoides, dado que el tratamiento quirúrgico conlleva el riesgo de desarrollar infección de la herida quirúrgica, formación de fistulas, defectos estéticos, recurrencias y formación de abscesos⁵. Se desconocen las dosis apropiadas y la duración del tratamiento. Se recomienda evitar dosis superiores a 60mg/día de prednisona o equivalente⁷. Cuando existe resistencia a los corticoides, recurrencias o importantes efectos adversos derivados de su uso, se ha propuesto el metotrexato⁶.

Gordonia spp. son bacterias grampositivas coreniformes de crecimiento lento. Muestran características intermedias entre el género *Nocardia* y el *Rhodococcus*. Previamente se clasificaban como una especie del género *Rhodococcus*, hasta que el análisis comparativo de ARN 16S hizo posible su identificación³. Se distinguen principalmente, además de *Gordonia sputi*, *G. bronchialis* y *G. terrae*, aunque existen más de 30 especies³. *G. sputi* es un germen ubicuo presente en la tierra y el agua, que no suele considerarse un patógeno humano. Sin embargo, ha ido surgiendo en los últimos años como agente infeccioso. En la mayoría de los casos, afecta a pacientes inmunocomprometidos o portadores de dispositivos médicos. Se han descrito sobre todo bacteriemias en pacientes portadores de catéter^{7,8}. No existe un tratamiento estándar para las infecciones de *Gordonia*. Generalmente son susceptibles a tratamiento antibiótico. Algunos estudios proponen utilizar carbapenémicos o fluorquinolonas. Se ha descrito también susceptibilidad al linezolid. Se recomienda descartar resistencia antibiótica *in vitro*⁸.

Presentamos este caso de MGI complicada con una infección producida por *G. sputi* en una paciente de 44 años por la rareza de ambas entidades. En un primer momento, se descartó la existencia de un carcinoma de mama o carcinoma inflamatorio de mama. Después se instauró tratamiento con corticoides, con buena respuesta, dada la reducción paulatina de la masa mamaria inicial. Se descartó el manejo quirúrgico, por un lado, por la buena respuesta al tratamiento con corticoides y, por otro, debido al desarrollo de una fístula tras BAG, que podría indicar complicaciones en caso de manejo quirúrgico. El desarrollo posterior de una mastitis complicada con absceso de mama, en la que se aisló

el germen *G. sputi*, obligó a la instauración de antibioterapia y drenaje de dicho absceso. En nuestro caso, parece ser que la adición de ciprofloxacino controló la infección. La duración del tratamiento antibiótico fue limitada debido a la afectación hepática. La afectación mamaria por este germen en una paciente inmunocompetente y sin prótesis de mama no había sido descrita antes en la literatura médica.

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.

Protección de personas y animales. Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

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

Financiación

Los autores declaran no tener financiación.

Conflicto de intereses

Los autores refieren no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Benson JR, Dumitru D. Idiopathic granulomatous mastitis: Presentation, investigation and management. *Future Oncol.* 2016;12:1381–94.
2. Barreto DS, Sedgwick EL, Nagi CS, Benveniste AP. Granulomatous mastitis: Etiology, imaging, pathology, treatment, and clinical findings. *Breast Cancer Res Treat.* 2018;171:527–31.
3. Lai CC, Wang CY, Liu CY, Tan CK, Lin SH, Liao CH, et al. Infections caused by *Gordonia* species at a medical centre in Taiwan, 1997 to 2008. *Clin Microbiol Infect.* 2010;16:1448–53.
4. Zhang HL, Cao B, Li J, Cheng Y, Wang XJ. Plastic expander-related *Gordonia sputi* infection: Case report and literature review. *Bio-med Environ Sci.* 2015;28:468–71.
5. Azizi A, Prasath V, Canner J, Gharib M, Sadat Fattahi A, Naser Forghani M, et al. Idiopathic granulomatous mastitis: Management and predictors of recurrence in 474 patients. *Breast J.* 2020;26.
6. Vanovcanova L, Lehotska V, Machalekova K, Waczulikova I, Minarikova E, Rauova K, et al. Idiopathic granulomatous mastitis-A new approach in diagnostics and treatment. *Neoplasma.* 2019;66(4.).
7. Montazer M, Dadashzadeh M, Toomatari SEM. Comparison of the outcome of low dose and high-dose corticosteroid in the treatment of idiopathic granulomatous mastitis. *Asian Pac Cancer Prev.* 2020;21:993–6.
8. Kofteridis DP, Valachis A, Scoulica E, Christidou A, Maraki S, Samonis G. Hickman catheter-related bacteremia caused by *Gordonia sputi* in a patient with breast cancer. *J Infect Dev Ctries.* 2012;6:188–91.