

Beata Jurkiewicz¹, Łukasz Jankowski², Joanna Samotyjek²,
Katarzyna Załęska², Grzegorz Gut², Danuta Rewicka²

Received: 14.12.2016
Accepted: 18.03.2016
Published: 30.09.2016

Nietypowy przebieg zapalenia tkanek miękkich, najprawdopodobniej spowodowany zakażeniem *Actinomyces* – opis przypadku

Atypical inflammation of the soft tissue, most likely caused by *Actinomyces* infection – a case report

¹ Państwowa Szkoła Wyższa im. Jana Pawła II w Białej Podlaskiej, Biała Podlaska, Polska

² Oddział Chirurgii Dziecięcej SZPZOZ w Dziekanowie Leśnym im. Dzieci Warszawy, Dziekanów Leśny, Polska. Ordynator Oddziału: dr hab. n. med., prof. PSW Beata Jurkiewicz

Adres do korespondencji: Dr hab. n. med., prof. PSW Beata Jurkiewicz, Oddział Chirurgii Dziecięcej SZPZOZ w Dziekanowie Leśnym im. Dzieci Warszawy, ul. Konopnickiej 65, 05-092 Dziekanów Leśny, e-mail: beatajurkiewicz@wp.pl

¹ Pope John Paul II State School of Higher Education in Biała Podlaska, Biała Podlaska, Poland

² Department of Paediatric Surgery, Warsaw Children Memorial Independent Public Complex of Health Care Facilities in Dziekanów Leśny, Dziekanów Leśny, Poland.

Head of Department: Professor Beata Jurkiewicz, MD, PhD

Correspondence: Professor Beata Jurkiewicz, MD, PhD, Department of Paediatric Surgery, Warsaw Children Memorial Independent Public Complex of Health Care Facilities in Dziekanów Leśny, Konopnickiej 65, 05-092 Dziekanów Leśny, Poland, e-mail: beatajurkiewicz@wp.pl

Streszczenie

Promienica jest bardzo rzadką przyczyną zapalenia tkanek miękkich okolicy warg sromowych u dziewczynek. Charakteryzuje się występowaniem twardych nacieków zapalnych z towarzyszącymi włóknieniem, ropniami i przetokami. Niecharakterystyczny przebieg utrudnia ustalenie właściwego rozpoznania. W artykule autorzy przedstawili trudności w diagnostyce i leczeniu zapalenia tkanek miękkich okolicy sromu o prawdopodobnej etiologii promienicznej u 7-letniej dziewczynki. Pacjentka była dwukrotnie hospitalizowana, w tym trzy razy operowana z powodu stanu zapalnego i ropnia w obrębie warg sromowych. W posiewach treści z ropnia wyhodowano *Staphylococcus aureus* MRSA. Stosowano leczenie ogólnoustrojowe antybiotykami z sześciu różnych grup, nie uzyskano jednak poprawy stanu miejscowego. Ropień płukano roztworem gentamycyny, stosowano maści steroidowe oraz fizykoterapię bez efektu. Ze względu na przewlekły przebieg oraz słabą odpowiedź na leczenie wysunięto podejrzenie zakażenia promienicznego. Podawano penicylinę przez łączny okres 3 miesięcy, uzyskując szybką poprawę i ostatecznie pełne wyleczenie dziecka. Pomimo braku potwierdzenia promienicznej etiologii zakażenia w posiewach oraz badaniu histopatologicznym przebieg terapii pozwala podejrzewać zakażenie *Actinomyces*.

Słowa kluczowe: promienica, antybiotykoterapia, zapalenie, ropień

Abstract

Actinomycosis is a very rare cause of inflammation of the labial soft tissue in girls. It is characterised by hard inflammatory infiltrates accompanied by fibrosis, abscesses and fistulas. The non-specific course of the disease makes a correct diagnosis difficult. In this paper, we have presented diagnostic and therapeutic difficulties in the inflammation of the labial soft tissue of probable actinomycotic aetiology in a 7-year-old girl. The patient was hospitalised twice, including three surgical procedures due to labial tissue inflammation and abscess. Methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* was cultured from the abscess content. Systemic antibiotics from six different classes were used; however, no improvement in the local condition was achieved. The abscess was irrigated with gentamicin solution; steroid ointments and physical therapy were used, but with no effect. A suspicion of actinomycotic infection was raised due to the chronic course of the disease and poor response to treatment. Penicillin was administered for a total period of 3 months, resulting in rapid improvement and, ultimately, a complete recovery of the child. Although the actinomycotic aetiology was not confirmed by cultures or histopathological examination, the course of the therapy has allowed to suspect *Actinomyces* infection.

Key words: actinomycosis, antibiotic therapy, inflammation, abscess

WSTĘP

Proces zapalny w okolicy warg sromowych jest częstym schorzeniem u dziewczynek hospitalizowanych na oddziałach chirurgii dziecięcej. Jedną z głównych przyczyn stanowi ropień warg sromowych i zapalenie gruczołu Bartholina, zwykle o etiologii bakteryjnej (*Neisseria gonorrhoeae*, *Escherichia coli*, *Chlamydia trachomatis*, *Bacteroides* sp., *Staphylococcus* sp., *Streptococcus* sp.). Promieniowce (*Actinomyces*) są wyjątkowo rzadką przyczyną takich zakażeń, a wywołwana przez nie promieniowca (*actinomycosis*) cechuje się przewlekłym przebiegiem. Niecharakterystyczny obraz kliniczny tej choroby i występujące często nadkażenie innymi drobnoustrojami dodatkowo utrudniają postawienie trafnej diagnozy i wdrożenie właściwego leczenia.

OPIS PRZYPADKU

Poniżej przedstawiamy przypadek przewlekłego procesu zapalnego w obrębie wargi sromowej większej u pacjentki leczonej na naszym Oddziale.

Siedmioletnia dziewczynka została przyjęta na Oddział Chirurgii Dziecięcej w trybie ostrego dyżuru z powodu ropnia wargi sromowej większej (ryc. 1). Przy przyjęciu pacjentka w stanie ogólnym dobrym, nie gorączkowała, miejscowo zwracało uwagę wyczuwalne, bolesne zgrubienie w okolicy wargi sromowej z towarzyszącym naciekiem zapalnym. W badaniach laboratoryjnych stwierdzono podwyższoną leukocytozę ($13,2 \times 10^3/\text{mm}$), przy prawidłowym CRP. Ropień nacięto w znieczuleniu ogólnym, usunięto czop ropny, ewakuowano dużą ilość płynnej, białej treści ropnej, którą pobrano na posiew. Stosowano antybiotykoterapię ogólnoustrojowo, początkowo empirycznie amoksylicyną z kwasem klawulanowym, a po uzyskaniu wyników



Ryc. 1. 24.04.2015 – nacieki zapalny wargi sromowej prawej
Fig. 1. April 24, 2015 – inflammatory infiltration of the right labia majora

INTRODUCTION

Inflammation of the labial area is a common condition in girls hospitalised in paediatric surgery units. Abscess of the labia and Bartholin's gland inflammation, usually of bacterial aetiology (*Neisseria gonorrhoeae*, *Escherichia coli*, *Chlamydia trachomatis*, *Bacteroides* sp., *Staphylococcus* sp., *Streptococcus* sp.), are one of the main causes. *Actinomyces* exceptionally rarely cause such infections, and actinomycosis is a chronic disease. Non-specific clinical picture and common superinfections with other microorganisms additionally prevent an accurate diagnosis and the implementation of appropriate treatment.

CASE REPORT

We present a case report of chronic inflammatory process within the labia major in a patient treated in our Department.

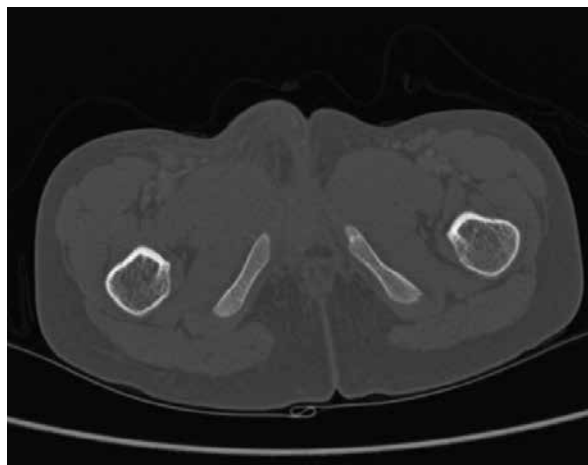
A 7-year-old girl was urgently admitted to the Department of Paediatric Surgery due to the abscess of the labia major (Fig. 1). On admission, the patient was in good overall condition, with no fever; however, palpable, tender thickening in the labial area accompanied by inflammatory infiltration was noted. Laboratory findings revealed increased white blood cell count ($13.2 \times 10^3/\text{mm}$), with normal CRP. The abscess was incised under general anaesthesia, the purulent plug was removed and a significant amount of white liquid purulent contents was evacuated and sampled for culture. Systemic antibiotic therapy was used, initially empirically: amoxicillin with clavulanic acid. Once abscess culture findings were obtained (methicillin-resistant *Staphylococcus aureus*, MRSA), treatment with trimethoprim/sulfamethoxazole was included, as in accordance with microbial sensitivity test results. Amikacin was included after 72 hours due to the lack of satisfactory clinical improvement. Topical treatment (rivanol compresses, irrigation of the abscess with 2% gentamicin solution) was also used. Local improvement was achieved. The patient was discharged home in good overall and local condition, with a recommendation to continue oral trimethoprim/sulfamethoxazole therapy.

The day after discharge, the patient again reported to emergency department due to significant deterioration of the local condition, expanding inflammatory infiltration, pruritus and increasing oedema involving the lower abdomen, the groin, the thigh, buttock and labia on the right side (Fig. 2). The girl was not feverish. Laboratory findings showed normal inflammatory markers. Another surgical revision of the labial abscess revealed no pathological reservoirs of purulent exudates. Trimethoprim/sulfamethoxazole therapy was continued, vancomycin was included, as in accordance with microbial sensitivity test results. The wound was irrigated with 2% gentamicin solution three times daily. No pathogenic microflora was obtained in another wound culture. The local condition did not improve despite treatment modification. Pelvic computed tomography (CT) was performed

posiewu treści z ropnia (*Staphylococcus aureus* MRSA) wdrożono leczenie trimetoprim + sulfametoksazol zgodnie z antybiogramem. Po 72 godzinach ze względu na brak satysfakcjonującej poprawy klinicznej do dotychczasowego leczenia dołączono amikacynę. Stosowano również leczenie miejscowe (okłady z riwanolu, płukanie ropnia 2-procentowym roztworem gentamycyny). Uzyskano poprawę stanu miejscowego. W stanie ogólnym i miejscowym dobrym chorą wypisano do domu z zaleceniem kontynuacji terapii trimetoprim + sulfametoksazol w formie doustnej.

Po upływie doby od wypisu z Oddziału pacjentka ponownie zgłosiła się na Izbę Przyjęć szpitala z powodu znacznego pogorszenia stanu miejscowego, poszerzającego się nacieku zapalnego, świądu oraz narastającego obrzęku obejmującego podbrzusze, pachwinę, okolice uda, pośladka i wargi sromowej po stronie prawej (ryc. 2). Dziewczynka nie gorączkowała, w badaniach laboratoryjnych wykładniki stanu zapalnego były prawidłowe. Wykonano powtórny chirurgiczną rewizję ropnia wargi sromowej, nie odnajdując patologicznych zbiorników z treścią ropną. Kontynuowano kurację trimetoprim + sulfametoksazol oraz wdrożono leczenie wankomycyną, zgodnie z wynikami antybiogramu. Ranę płukano 2-procentowym roztworem gentamycyny trzy razy na dobę. W kolejnym posiewie z rany nie wyhodowano patogennej flory bakteryjnej. Pomimo modyfikacji leczenia stan miejscowy nie poprawiał się. W poszukiwaniu głębokich zbiorników płynowych oraz w celu oceny elementów kostnych w obrębie miednicy wykonano tomografię komputerową, w której opisano izolowany stan zapalny skóry i tkanki podskórnej (ryc. 3). Odstawiono wankomycynę, rozpoczęto leczenie rifampicyną oraz metronidazolem, utrzymując trimetoprim + sulfametoksazol dożylnie. Pomimo intensywnego leczenia obserwowano dalsze pogarszanie się stanu miejscowego.

W 25. dobie od rozpoczęcia choroby stwierdzono pogorszenie stanu ogólnego chorej, dodatkowo odnotowano



Ryc. 3. Tomografia komputerowa z dn. 13.05.2015 uwidoczniła nacieki zapalne w obrębie skóry i tkanki podskórnej
Fig. 3. A CT scan (May 13, 2015) revealing inflammatory infiltration of the skin and subcutaneous tissue



Ryc. 2. 04.05.2015 – stan miejscowy u dziecka w chwili powtórnej przyjęcia na Oddział

Fig. 2. May 4, 2015 – patient's local condition on readmission to the Department

to identify deep-seated fluid reservoirs as well as to assess bone elements, revealing isolated inflammation of the skin and subcutaneous tissue (Fig. 3). Vancomycin was discontinued, rifampicin/metronidazole was included, trimethoprim/sulfamethoxazole was continued intravenously.

Despite intensive treatment, further deterioration of local condition was observed.

On day 25 after the onset of the disease, deterioration of the overall patient's state was observed. Additionally, limited right hip extension and abdominal tenderness on palpation occurred. Repeatedly performed abdominal, groin and hip ultrasound showed no significant abnormalities or pathological fluid reservoirs. Physical therapy was implemented – phototherapy and laser therapy were used with little effect. Due to the lack of improvement and persistent, massive inflammatory infiltration, surgical incision of the perineal and hypogastric soft tissue was performed under general anaesthesia on day 32 after the onset of the disease. No fluid reservoirs were found, no pathogenic microflora was obtained from wound culture. Due to the lack of clinical improvement, rifampicin and metronidazole were discontinued, trimethoprim/sulfamethoxazole were continued, topical hydrocortisone ointment was used. A minor reduction in the severity of inflammation, particularly in the lower abdominal area, the proximal part of the thigh and the right buttock, was achieved. Recurrent body temperature drops to 37.7°C were observed during the hospitalisation period. The patient was repeatedly consulted with a paediatrician; laboratory findings (CBC, CRP, coagulation, electrolytes, proteinogram, urea, creatinine, liver enzymes, immunoglobulins, ANA, HIV, Lyme disease, serological tests for toxoplasmosis) showed no evident causes of the observed course of treatment; laboratory findings remained within normal limits (Tab. 1). On hospitalization day 37,

ograniczenie wyprustu w stawie biodrowym prawym oraz bolesność palpacyjną w jamie brzusznej. Wielokrotnie powtarzano badanie ultrasonograficzne jamy brzusznej, okolicy pachwiny i stawu biodrowego – nie stwierdzono istotnych odchyłań, nie uwidoczono patologicznych zbiorników płynowych. Zdecydowano o wdrożeniu fizykoterapii – stosowano światłolecznictwo i laseroterapię z miernym efektem. Ze względu na całkowity brak poprawy oraz utrzymywanie się masywnego nacieku zapalnego w 32. dobie od rozpoczęcia choroby w znieczuleniu ogólnym wykonano nacięcie tkanek miękkich okolicy kroczka i podbrzusza. Nie znaleziono zbiorników płynowych, w posiewie z rany nie wyhodowano patogennej flory bakteryjnej. Wobec braku poprawy klinicznej odstawiono rifampicynę oraz metronidazol, pozostawiono trimetoprim + sulfametoksazol, zastosowano miejscowo hydrokortyzon w maści. Uzyskano niewielkie zmniejszenie intensywności stanu zapalnego, głównie w okolicy podbrzusza, proksymalnej części uda i pośladka prawego. Podczas hospitalizacji kilkakrotnie obserwowano nawrotowe zwwyżki temperatury ciała do 37,7°C. Chorą kilka razy konsultowano pediatrycznie, w wykonywanych badaniach laboratoryjnych (morfologia krwi, CRP, koagulogram, jonogram, proteinogram, mocznik, kreatynina, enzymy wątrobowe, immunoglobuliny, ANA, HIV, borelioza, testy serologiczne w kierunku toksoplazmozy) nie

trimetoprim/sulfamethoxazole therapy, which was used from the beginning of patient's stay in the Department, was discontinued due to the lack of clinical improvement (Fig. 4).

Based on the clinical picture, a suspicion of actinomycotic infection was raised. On hospitalisation day 38, the girl was consulted in the Clinic of Immunology at the Children's Memorial Health Institute to exclude immune disorders. No immune disorders were identified; clinical suspicion of actinomycosis was maintained. On the same day the patient was also consulted in the Department of Dermatology of the Miedzylesie Specialist Hospital in Warsaw, where the diagnosis of actinomycosis was considered likely. Another wound culture was performed, yet no pathogenic microflora was found.

It was decided to include intravenous crystalline penicillin. On the second day of penicillin treatment, under general anaesthesia, a specimen was collected from the inflammatory infiltrate area for histopathological examination, which revealed chronic inflammatory granular infiltration with focal necrosis of the adipose tissue.

A rapid improvement in the local patient's condition, reduction of the inflammatory infiltrate, regression of oedema, recovery of mobility in the right hip as well as subsidence of abdominal tenderness on palpation were observed during penicillin treatment.

Morfologia i biochemia Blood cell count and biochemistry											
Data Date	Ht%	Hb	E	L	MCV	Kreatynina Creatinine	Mocznik Urea	Płytki Platelets	AST U/l	ALT U/l	CRP mg/l
21.04.2015 April 21, 2015	36	12,3	4,6	13,2	79,1						1,9
24.04.2015 April 24, 2015	34,5	12,1	4,4	8,6	78,8			410			29,2
04.05.2015 May 4, 2015	34,9	12,1	4,4	8,5	79			463			1,0
11.05.2015 May 11, 2015	36,1	12,6	4,6	6,7	79,2			395	33	28	0,7
14.05.2015 May 14, 2015	39,1	13,3	4,9	7,7	79,3			403			3,2
19.05.2015 May 19, 2015	39,3	13,4	5,0	6,4	79,2	0,46	18	306	57	39	0,8
26.05.2015 May 26, 2015	38,9	13,1	4,9	8,2	79,9	0,43	15	366	44	30	0,7
11.06.2015 June 11, 2015	39,2	13,3	4,9	5,9	79,5	0,37	13	409	38	19	1,2

14.05.2015: HIV przesiewowy (przeciwciała anti-HIV, antygen p24) (negatywny).
 14.05.2015: przeciwciała przeciwjądrowe ANA (nie wykryto).
 30.05.2015: *Toxoplasma gondii* przeciwciała IgG <0,50 IU/ml (nieobecne), przeciwciała IgM 0,23 IU/ml (nieobecne).
 10.06.2015: IgA 65,3 mg/dl; IgM 125,5 mg/dl; IgG 1168 mg/dl; IgE 18,7 mg/dl.
 10.06.2015: borelioza IgG 11,3 RU/ml (negatywny); borelioza IgM 5,9 RU/ml (negatywny).
 May 14, 2015: HIV screening (anti-HIV antibodies, p24 antigen) (negative).
 May 14, 2015: antinuclear antibodies (ANA) (not detected).
 May 30, 2015: *Toxoplasma gondii* IgG <0.50 IU/mL (absent), IgM 0.23 IU/mL (absent).
 June 10, 2015: IgA 65.3 mg/dL; IgM 125.5 mg/dL; IgG 1,168 mg/dL; IgE 18.7 mg/dL.
 June 10, 2015: Lyme disease IgG 11.3 RU/mL (negative); Lyme disease IgM 5.9 RU/mL (negative).

Tab. 1. Selected patient's laboratory findings

Tab. 1. Wybrane wyniki badań laboratoryjnych dziecka

stwierdzano uchwytne przyczyny obserwowanego przebiegu leczenia, wyniki badań laboratoryjnych pozostawały w granicach normy (tab. 1). W 37. dobie hospitalizacji, ze względu na brak poprawy klinicznej (ryc. 4), odstawiono trimetoprim + sulfametoksazol, który dziewczynka przyjmowała od początku pobytu na Oddziale.

Ze względu na obraz kliniczny wysunięto podejrzenie zakażenia o etiologii promienicznej. Celem wykluczenia zaburzeń odporności w 38. dobie hospitalizacji dziewczynkę konsultowano w Poradni Immunologicznej Centrum Zdrowia Dziecka. Nie stwierdzono zaburzeń immunologicznych, podtrzymano kliniczne podejrzenie promienicy. W tym samym dniu pacjentkę konsultowano również na Oddziale Dermatologii Międzyleskiego Szpitala Specjalistycznego w Warszawie, gdzie uznano rozpoznanie promienicy za prawdopodobne. Pobrano kolejny posiew treści z okolicy rany, nie stwierdzając patogennej flory bakteryjnej.

Zdecydowano o włączeniu do leczenia penicyliny krystalicznej dożylnie. W drugiej dobie terapii penicyliną w znieczuleniu ogólnym pobrano wycinek z okolicy nacieku zapalnego do badania histopatologicznego, w którym opisano przewlekły naciek zapalny z ziarninowaniem oraz ogniskową martwicą tkanki tłuszczowej.

W trakcie leczenia penicyliną krystaliczną obserwowano szybką poprawę stanu miejscowego pacjentki, ograniczenie się nacieku zapalnego, ustąpienie obrzęku, powrót ruchomości w prawym stawie biodrowym oraz ustąpienie bolesności palpacyjnej w obrębie jamy brzusznej.

Kontrolne badania laboratoryjne pozostawały w zakresie normy. Po 2 tygodniach stosowania penicyliny krystalicznej dożylnie stan miejscowy poprawił się (ryc. 5). Pacjentkę wypisano do domu w stanie ogólnym dobrym do dalszego leczenia w trybie ambulatoryjnym, z zaleceniem przyjmowania penicyliny fenoksymetylowej doustnie przez kolejne 2 miesiące. Podczas kontroli ambulatoryjnych stwierdzono całkowite ustąpienie dolegliwości. W 3. miesiącu po wypisie ze szpitala zakończono leczenie.

OMÓWIENIE

Promienica (*actinomycosis*) jest rzadką, przewlekłą chorobą ziarniniakową wywoływaną przez bakterie z rodziny *Actinomyces*, najczęściej *Actinomyces israeli*. Charakteryzuje się występowaniem twardych nacieków zapalnych z towarzyszącym włóknieniem, tworzeniem się ropni i przetok. Do zakażenia promienicą dochodzi po mechanicznym uszkodzeniu błony śluzowej, co pozwala drobnoustrojowi na aktywną penetrację do tkanek. Zakażenie najczęściej lokalizuje się w obrębie głowy i szyi (63%) lub jamy brzusznej i miednicy mniejszej (22%)⁽¹⁾.

Szerokie stosowanie antybiotykoterapii oraz poprawa stanu higienicznego w społeczeństwie ograniczyły częstość występowania promienicy. Z tego względu na terenie Polski brakuje centrów medycznych z doświadczeniem w diagnozowaniu i leczeniu tej choroby. Nawet w dużych ośrodkach klinicznych zajmujących się leczeniem zakażeń



Ryc. 4. 29.05.2015 – stan miejscowy po interwencji chirurgicznej, w okresie przed włączeniem leczenia penicyliną fenoksymetylową

Fig. 4. May 29, 2015 – local condition after surgical intervention, before the inclusion of phenoxymethylpenicillin

Follow-up laboratory findings remained within normal limits. The local condition improved after 2 weeks of IV crystalline penicillin therapy (Fig. 5). The patient was discharged home in good overall condition with instructions for further treatment on an outpatient basis and a recommendation to receive oral phenoxymethylpenicillin for 2 months. Outpatient follow-up showed a complete resolution of symptoms. The treatment was completed 3 months after hospital discharge.

DISCUSSION

Actinomycosis is a rare chronic granulomatous disease caused by a family of bacteria known as *Actinomyces*,



Ryc. 5. 11.06.2015 – stan miejscowy w dniu wypisu ze szpitala
Fig. 5. June 11, 2015 – local condition on discharge

hospitalizowany jest średnio nie więcej niż 1 pacjent z promieniową w ciągu 1 roku^(2,3). Promieniowa należy do bardzo rzadkich przyczyn ropnych zakażeń u dzieci. Brak jest danych dotyczących epidemiologii promienicy w populacji pediatrycznej. Częstość występowania zakażeń o tej etiologii wynosi u dorosłych około 1–5/100 000, częściej na obszarach wiejskich⁽⁴⁾.

Postawienie prawidłowej diagnozy jest w przypadku zakażeń promienicznych niezwykle trudne, a rozpoznanie przedoperacyjne udaje się ustalić jedynie u 10% pacjentów⁽⁵⁾.

Utrudnienie w diagnostyce stanowi fakt, że promieniowa jest w przeważającej większości przypadków zakażeniem mieszanym. Promieniowce odpowiadają za przewlekły przebieg oraz rokowanie, natomiast za początkowy obraz kliniczny i powikłania promienicy – zwykle drobnoustroje współzakażające, którymi najczęściej są paciorkowce lub gronkowce. W przypadku nadkażenia tymi drobnoustrojami zazwyczaj obserwuje się rozwój ropnia albo ropowiczego zapalenia tkanki podskórnej. W przypadku opisywanej przez nas pacjentki doszło pierwotnie do wytworzenia ropnia, z którego treści wyhodowano gronkowca złocistego MRSA.

Po zastosowaniu antybiotykoterapii celowanej na ten drobnoustrój uzyskano jałowe posiewy z rany, przy utrzymujących się objawach klinicznych, co mogło świadczyć o tym, że *Staphylococcus aureus* był jednym z wielu, lecz nie jedynym drobnoustrojem chorobotwórczym odpowiedzialnym za przebieg kliniczny. W kilkakrotnych posiewach nie udało się wyhodować kolonii *Actinomyces*. Drobnoustrój ten jest trudny do hodowli, według piśmiennictwa udaje się go uzyskać jedynie w mniej niż 30–50% posiewów treści uzyskanej od chorych zakażonych. Brak jest specyficznego podłoża, drobnoustrój cechuje niestabilność termiczna, zwykle zakażenie promieniowcami nie jest brane pod uwagę w trakcie pobierania materiału i analizy wyników⁽⁶⁾. U naszej pacjentki w badaniach laboratoryjnych początkowo obserwowano podwyższony poziom leukocytów we krwi, bez innych istotnych odchyśleń, następnie parametry białokrwinkowe znormalizowały się. Brak jest opisywanych patognomonicznych dla promienicy odchyśleń w standardowo wykonywanych badaniach laboratoryjnych. Zakażenie może przebiegać z anemią, leukocytozą niewielkiego stopnia, często dochodzi również do podwyższenia CRP⁽⁷⁾. Badania biochemiczne i wyniki morfologii krwi nie są pomocne w diagnostyce promienicy.

Do ostatecznego ustalenia rozpoznania w większości przypadków dochodzi na podstawie wyników badania histopatologicznego lub wyhodowania drobnoustroju, a za patognomoniczne uważa się tzw. ziarenka siarki obecne w preparacie. W przypadku naszej pacjentki wycinek do badania pobrano w 2. dobie po zastosowaniu zalecanego w promienicy leczenia penicyliną krystaliczną. Stwierdzono przewlekły naciek zapalny z ziarninowaniem oraz ogniskową martwicę tkanki tłuszczowej. W opisywanych w literaturze przypadkach promienicy wynik badania histopatologicznego nie zawsze jest rozstrzygający,

usually by *Actinomyces israeli*. It is characterised by hard inflammatory infiltrates accompanied by fibrosis, abscesses and fistulas. Actinomycosis infection occurs after mechanical mucosal injury, which allows the pathogen for an active tissue penetration. The infection is usually located in the head and the neck (63%) or the abdomen and the pelvis (22%)⁽¹⁾.

The wide use of antibiotics and improved social hygiene contribute to the reduced incidence of actinomycosis. Therefore, the number of medical centres with experience in the diagnosis and treatment of this disease is clearly insufficient in Poland. Even in large clinical centres specialised in the treatment of infections, an average of not more than 1 patient with actinomycosis is hospitalised during one year^(2,3). Actinomycosis is a very rare cause of purulent infections in children. There are no data on the epidemiology of actinomycosis in the paediatric population. The incidence of actinomycotic infections is about 1–5/100,000 adults, with higher rates in rural areas⁽⁴⁾.

A correct diagnosis in actinomycotic infections is very difficult, and a preoperative diagnosis is achievable in only 10% of patients⁽⁵⁾.

The difficulty in diagnosis is that actinomycosis is a mixed infection in most cases. Actinomycetes are responsible for the chronic course and the prognosis, while coinfecting microorganisms, usually streptococci or staphylococci, affect the initial clinical picture and actinomycotic complications. In the case of superinfection with these pathogens, abscess or phlegmonous subcutaneous inflammation may be observed. In our patient, an abscess initially developed, from which MRSA was cultured.

After targeted antibiotic therapy against this pathogen, sterile wound cultures were obtained, however, the clinical symptoms still persisted, which could indicate that *Staphylococcus aureus* was one of many, and not the only pathogen responsible for the clinical course of the disease. The repeated attempts to culture *Actinomyces* colony were unsuccessful. This microorganism is difficult to culture. According to literature, it is obtainable in less than 30–50% of cultures from infected patients. There is no specific substrate, and the microbe is thermally unstable. Moreover, actinomycetes infection is not taken into consideration during specimen collection and analysis⁽⁶⁾. Increased white blood cell count with no other significant abnormalities was initially observed in our patient, followed by WBC parameter normalisation. No actinomycosis-specific pathognomonic abnormalities in standard laboratory tests have been reported. The infection may be accompanied by anaemia, mild leukocytosis or, often, increased CRP⁽⁷⁾. Biochemical evaluation and blood cell count are of no use in the diagnosis of actinomycosis.

Final diagnosis is based in most cases on histopathological findings or cultured pathogens, with the so-called 'sulphur granules' in the preparation considered pathognomonic. In our patient, the specimen was collected two days following the administration of crystalline penicillin, which

a opisywana u naszej pacjentki ziarnina zapalna może odpowiadać zmianom w przebiegu infekcji promienicznej⁽⁸⁾. Leczeniem z wyboru w przypadku zakażeń promienicznych jest penicylina krystaliczna podawana dożylnie oraz drenaż chirurgiczny, a następnie wielomiesięczne leczenie doustne penicyliną fenoksymetylową. Donoszono o bardzo rzadkiej oporności drobnoustrojów z gatunku *Actinomyces* na penicylinę. W takich wypadkach rekomendowany jest imipenem lub klindamycyna⁽⁹⁾. Znana jest wysoka oporność *Actinomyces* na fluorochinolony, metronidazol, aminoglikozydy, aztreonam, trimetoprim, a także penicyliny izoksazolowe i cefaleksynę⁽⁷⁾.

U naszej pacjentki w toku leczenia, przed postawieniem diagnozy, nieskutecznie stosowano sześć antybiotyków z różnych grup ogólnoustrojowo (amoksylicyna + kwas klawulanowy, amikacyna, wankomycyna, rifampicylina, metronidazol), a także płukanie ropnia miejscowo 2-procentowym roztworem gentamycyny. Trzykrotnie dokonywano chirurgicznej rewizji ropnia. Całkowite wyleczenie uzyskano dopiero po zastosowaniu penicyliny krystalicznej przez łączny okres 3 miesiące (początkowo 14 dni dożylnie, następnie doustnie). Całkowity czas hospitalizacji chorej wyniósł 51 dni.

PODSUMOWANIE

W trudno leczących się, przewlekłych infekcjach przebiegających z zapaleniem tkanek miękkich lub ropniem warto rozważyć możliwość występowania rzadkiego czynnika etiologicznego, jakim jest promienica. Postawienie diagnozy jest w tych przypadkach trudne. Przy zastosowaniu penicyliny krystalicznej oraz rewizji chirurgicznej odsetek trwałych wyleczeń pacjentów z promienicą przekracza 90%.

Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść publikacji oraz rościć sobie prawo do tej publikacji.

Piśmiennictwo / References

1. Zaryjewski D, Malarkiewicz JA, Ciuńczyk J et al.: Promienica miednicy mniejszej, obejmująca jajnik, jajowód, pęcherz moczowy, odbytnicę i esicę oraz ścianę miednicy, imitująca rozsiały proces nowotworowy. *Pol Ann Med* 2009; 16: 120–127.
2. Weese WC, Smith IM: A study of 57 cases of actinomycosis over a 36-year period. A diagnostic 'failure' with good prognosis after treatment. *Arch Intern Med* 1975; 135: 1562–1568.
3. Bennhoff DF: Actinomycosis: diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. *Laryngoscope* 1984; 94: 1198–1217.
4. Hamid D, Baldauf JJ, Cuenin C et al.: Treatment strategy for pelvic actinomycosis: case report and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2000; 89: 197–200.
5. Chatwani A, Amin-Hanjani S: Incidence of actinomycosis associated with intrauterine devices. *J Reprod Med* 1994; 39: 585–587.

is a recommended therapy in actinomycosis. Chronic inflammatory granular infiltration with focal necrosis of the adipose tissue was observed. In the cases of actinomycosis described in the literature, histopathological findings are not always conclusive, and the inflammatory granulation tissue may correspond to lesions in the course of actinomycotic infection⁽⁸⁾.

Intravenous crystalline penicillin or surgical drainage followed by long-term oral phenoxymethylpenicillin administration is the treatment of choice in actinomycotic infections. Only very rare cases of *Actinomyces* resistance to penicillin have been reported. In such cases, imipenem or clindamycin are recommended⁽⁹⁾. *Actinomyces* are also known to be highly resistant to fluoroquinolone, metronidazole, aminoglycosides, aztreonam, trimethoprim as well as isoxazole penicillins and cephalexin⁽⁷⁾.

In our patient, six systemic antibiotics from different classes (amoxicillin/clavulanic acid, amikacin, vancomycin, rifampicin, metronidazole) as well as topical abscess irrigation with 2% gentamicin solution were used unsuccessfully. Three surgical abscess revisions were performed. A complete recovery was achieved only after the use of crystalline penicillin for a total period of 3 months (intravenously for the first 14 days of therapy, and then orally). The total time of hospitalisation was 51 days.

CONCLUSION

It is worth considering the potential involvement of a rare aetiological factor, i.e. actinomycosis, in difficult-to-treat, chronic infections accompanied by soft tissue inflammation or abscess. The diagnosis is difficult in such cases. The permanent cure rate in patients with actinomycosis exceeds 90% due to the use of crystalline penicillin and surgical revision.

Conflict of interest

Authors of this publication do not report any financial or personal connections with other people or organizations which would have had influence on the content of the publication or which would claim the rights to this publication.

6. Belmont MJ, Behar PM, Wax MK: Atypical presentations of actinomycosis. *Head Neck* 1999; 21: 264–268.
7. Moniruddin ABM, Begum H, Nakar K: Actinomycosis: an update. *Med Today* 2010; 22: 43–47.
8. Kaszuba M, Tomaszewska R, Pityński K et al.: Promienica imitująca zaawansowaną chorobę nowotworową. *Pol Arch Med Wewn* 2008; 118: 581–584.
9. Choice of antibacterial drugs. *Treat Guidel Med Lett* 2007; 5: 33–50.