



## ORIGINAL

# Sacroileítis piógena: Lecciones aprendidas de una serie de casos atípicos

Joana Arcângelo<sup>a,\*</sup>, Susana Norte Ramos<sup>b</sup>, Pedro Alves<sup>c</sup>, Delfin Tavares<sup>b</sup> y Catarina Gouveia<sup>d</sup>

<sup>a</sup> Unidad de Ortopedia, Hospital Curry Cabral, Centro Hospitalar de Lisboa Central, EPE, Lisboa, Portugal

<sup>b</sup> Unidad de Ortopedia, Hospital de Dona Estefânia, Centro Hospitalar de Lisboa Central, EPE, Lisboa, Portugal

<sup>c</sup> Departamento de Radiología, Hospital de Dona Estefânia, Centro Hospitalar de Lisboa Central, EPE, Lisboa, Portugal

<sup>d</sup> Unidad de Infectología, Hospital de Dona Estefânia, Centro Hospitalar de Lisboa Central, EPE, Lisboa, Portugal

Recibido el 6 de junio de 2018; aceptado el 30 de julio de 2018

Disponible en Internet el 23 de mayo de 2019

### PALABRAS CLAVE

Sacroileítis piógena;  
Agentes atípicos;  
Infección  
osteoarticular  
pediátrica

### Resumen

**Introducción:** La sacroileítis piógena (SIP) es una entidad infrecuente que representa del 1 al 2% del total de las infecciones articulares en la edad pediátrica. Su diagnóstico a menudo se complica y retrasa debido a la inespecificidad de sus síntomas, signos y exploración física. Además, la identificación microbiológica puede resultar difícil debido a la alta proporción de hemocultivos negativos y los riesgos implicados en la aspiración de líquido articular en esta localización.

**Pacientes y métodos:** Revisión retrospectiva de las historias clínicas de todos los pacientes menores de 18 años ingresados en un hospital infantil terciario con SIP en el período 2008-2016.

**Resultados:** Se identificaron 6 casos de SIP en niños. Los hemocultivos fueron negativos, y la identificación del agente etiológico requirió aspiración de líquido sinovial en un paciente con infección por *Aggregatibacter aphrophilus* y pruebas específicas para la detección de agentes menos frecuentes en los pacientes restantes: *Kingella kingae* (n = 2), *Brucella melitensis* (n = 1) y *Bartonella henselae* (n = 1). Los pacientes recibieron regímenes de antibioterapia específica, y todos presentaron una evolución favorable y libre de secuelas durante el seguimiento.

**Conclusiones:** A pesar del reducido tamaño muestral, nuestro estudio puso de relieve la baja efectividad del hemocultivo en el diagnóstico de la SIP pediátrica. También evidenció la necesidad de mantener un elevado índice de sospecha de los agentes atípicos y de emplear precozmente métodos diagnósticos apropiados, como las pruebas de imagen y la reacción en cadena de la polimerasa (PCR) en muestras de sangre, así como la prescripción de antibioterapia efectiva.

© 2018 Publicado por Elsevier España, S.L.U. en nombre de Asociación Española de Pediatría. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [joana.arcangelo@gmail.com](mailto:joana.arcangelo@gmail.com) (J. Arcângelo).

**KEYWORDS**

Pyogenic sacroiliitis;  
Atypical agents;  
Paediatric  
osteoarticular  
infection

**Pyogenic sacroiliitis: Lessons learned from an atypical case series****Abstract**

**Introduction:** Pyogenic sacroiliitis (PSI) is a rare condition that amounts to 1% to 2% of all joint infections in the paediatric age group. Its diagnosis is often difficult and delayed due to its nonspecific signs, symptoms and physical findings. Also, the identification of the causative microorganism is frequently challenging due to a high proportion of negative blood cultures and the risks involved in joint aspiration in this site.

**Patients and methods:** We performed a retrospective review of the health records of all patients aged less than 18 years admitted to a tertiary children's hospital due to PSI between 2008 and 2016.

**Results:** We identified 6 cases of paediatric PSI. The blood cultures were negative, and the identification of the causative agent required joint fluid aspiration in one patient with infection by *Aggregatibacter aphrophilus*, and specific screening tests for less frequent agents in the other patients: *Kingella kingae* (n = 2), *Brucella melitensis* (n = 1) and *Bartonella henselae* (n = 1). The patients were treated with specific antimicrobial regimens, and all had favourable clinical outcomes and were free from sequelae during the follow-up.

**Conclusions:** Despite the small sample size, our study evinced the low effectiveness of blood cultures for diagnosis of paediatric PSI. It also highlights the need for a high level of suspicion for atypical agents and the early use of adequate diagnostic methods, including imaging and serological testing or polymerase chain-reaction (PCR) analysis of blood samples, as well as prescription of effective antimicrobial therapy.

© 2018 Published by Elsevier España, S.L.U. on behalf of Asociación Española de Pediatría. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

**Introducción**

La sacroileítis piógena (SIP) es una entidad poco común que representa del 1 al 2% del total de las infecciones articulares en la edad pediátrica<sup>1-4</sup>. Su diagnóstico puede ser complicado debido a la inespecificidad de sus signos, síntomas y exploración física, que a menudo se solapan con los de otras causas de dolor de espalda. Al ingreso, esta entidad no se sospecha inicialmente en el 50% de los pacientes<sup>5</sup>, y este retraso en el diagnóstico puede conllevar un aumento de la morbilidad y de la discapacidad a largo plazo. La SIP suele cursar con fiebre y cojera, con dolor mal localizado y sin limitación de movilidad en la cadera<sup>5,6</sup>. El signo más sensible es el test de FABER: se produce o intensifica el dolor en la articulación sacroilíaca al posicionar la cadera contralateral en flexión (F), abducción (AB) y rotación externa (ER)<sup>7</sup>. La resonancia magnética (RM) ha mejorado la sensibilidad del diagnóstico de SIP y actualmente se considera el patrón oro para el diagnóstico precoz de la sacroileítis y las infecciones osteoarticulares en general<sup>5,6</sup>. Los hallazgos de laboratorio son inespecíficos, por lo que aún se consideran esenciales un resultado positivo de hemocultivo, aspirado de líquido articular o biopsia para identificar al microorganismo causal<sup>8</sup>. Históricamente, el *Staphylococcus aureus* ha sido el agente etiológico identificado con mayor frecuencia<sup>3,5</sup>. No obstante, se ha objetivado que *Kingella kingae* es una causa importante de SIP en niños de 6 meses a 4 años de edad<sup>6,9</sup>. La identificación del agente causal es importante, ya que un régimen antimicrobiano apropiado suele conseguir una resolución rápida de los síntomas sin necesidad de recurrir a procedimientos invasivos.

El objetivo del estudio fue caracterizar el perfil epidemiológico, diagnóstico y clínico de pacientes con SIP ingresados en nuestro hospital infantil de tercer nivel.

**Pacientes y métodos**

Revisión retrospectiva de las historias clínicas hospitalarias de todos los pacientes menores de 18 años ingresados en nuestro hospital infantil de tercer nivel en Lisboa, Portugal, con diagnóstico de SIP (CIE-9 720.2) entre 2008 y 2016. También se analizaron factores demográficos y de predisposición, los signos y síntomas clínicos, los resultados de las pruebas de laboratorio y de imagen, su evolución clínica y secuelas.

**Resultados**

Se identificaron 6 pacientes. La distribución por sexo fue uniforme, y la edad media fue de 6,3 años (rango: 13 meses-14 años). Tres eran niños pequeños de 12 a 27 meses de edad, y los otros 3 niños eran mayores de 7 años (rango: 7-14 años). Todos habían estado sanos antes del episodio, y la mitad de ellos refirieron manifestaciones recientes de infección respiratoria de vías altas. Todos los pacientes presentaron fiebre, cojera y dolor en distintas localizaciones (extremidad inferior, lumbares y fosa ilíaca ipsilateral) (tabla 1). Se habían documentado los resultados del test de FABER en 4 pacientes, todos ellos positivos. Al ingreso, el recuento leucocitario medio fue de 14.933/ $\mu$ l (rango: 9.500-22.500); el nivel medio de proteína c reactiva, 99 mg/l (rango:

**Tabla 1** Datos epidemiológicos y clínicos; tratamiento y evolución de pacientes con sacroileítis piógena (enero 2008-agosto 2016)

Caso Año	Edad	Sexo	Factor pre-disponible	Evolución hasta el ingreso (días)	Síntomas	Examen físico (test de FABER)	Leucocitos ( $\times 10^6/l$ )	CRP (mg/l) y VSG (mm/h) al ingreso	Microbiología	Pruebas de imagen	Absceso	Antibioterapia	Secuelas	Seguimiento (meses)
1 2010	12 años	V	Contacto con animales de granja	240	Fiebre, dolor de cadera	+	10.003	33 44	HC – Serología para <i>Brucella melitensis</i> + HC –	Rayos X – Gammagrafía + RM +	No	Gentamicina (7 d i.v.) + doxiciclina + rifampicina (16 s oral)	No	24
2 2011	27 meses	M	IVRA	10	Fiebre, dolor de cadera, cojera	No	13.400	111 40	HC –	Rayos X – TC – RM +	No	Flucloxacilina (30 d i.v. + 21 d oral)	No	11
3 2014	14 años	V	No	2	Fiebre, dolor de espalda/cadera/fosa iliaca	+	9.500	93 11	HC – Aspirado articular <i>Aggregatibacter aphrophilus</i> +	Rayos X – TC + RM +	No	Flucloxacilina + clindamicina (14 d i.v.) - > Ceftriaxona + gentamicina (21 d i.v.) + 21 d levofloxacin oral	No	6
4 2015	26 meses	M	IVRA	3	Fiebre, dolor de cadera, cojera	+	17.700	113 92	HC – Prueba para <i>Kingella frotis</i> +	Rayos X – RM +	Pequeño	Flucloxacilina (11 d i.v. + 30 d oral) + gentamicina (7 d i.v.)	No	11
5 2015	7 años	M	IVRA	15	Fiebre, dolor de extremidades superiores e inferiores	+	16.500	102 47	HC – PCR en sangre y serología para <i>Bartonella</i> +	Rayos X – TC – Gammagrafía +	No	Flucloxacilina (7 d i.v. + 3 s oral) clindamicina (7 d i.v.)	No	6
6 2016	13 meses	V	No	1,5	Fiebre, dolor de extremidades inferiores, cojera	No	22.500	139 2	HC – Prueba para <i>Kingella frotis</i> +	Rayos X – RM +	No	Cefuroxima + clindamicina (8 d i.v.) + cefuroxima (3 s oral)	No	12

CRP: proteína C reactiva; d: días; HC: hemocultivo; i.v.: intravenoso; IVRA: infección de las vías respiratorias altas; M: mujer; PCR: reacción en cadena de la polimerasa; RM: resonancia magnética; s: semanas; TC: tomografía computarizada; V: varón; VSG: velocidad de sedimentación globular.

33-139 mg/l); y la velocidad de sedimentación globular (VSG) media, 39 mm/h (rango, 2-92 mm/h). Los resultados del hemocultivo fueron negativos en todos los pacientes.

La radiografía pélvica fue normal en todos los pacientes. Se realizó tomografía computarizada (TC) en 3 pacientes, que en uno de ellos reveló un secuestro óseo subcondral en el tercio inferior de la articulación sacroilíaca probablemente debido a un foco osteomielítico subcondral con disrupción de la cortical y afectación articular subsiguiente. Se llevó a cabo gammagrafía ósea en 2 pacientes, objetivándose en ambos un aumento de captación del trazador en la región sacroilíaca. Todos los pacientes tuvieron rasgos alterados en la RM en secuencias T2 y T1 con gadolinio, con áreas de hiperintensidad en la articulación sacroilíaca y los músculos adyacentes. En un paciente (caso 3), la imagen realzada con gadolinio también reveló un absceso intraarticular pequeño.

Al comparar a los niños menores de 4 años con los niños mayores, observamos que los pequeños presentaron con mayor frecuencia cojera o problemas con la carga de peso, se diagnosticaron antes (4,8 vs. 85,7 días), tuvieron medias más altas de recuento leucocitario y de niveles de proteína C reactiva al ingreso, y recibieron tratamientos más cortos (42 vs. 65 días). En el grupo de niños pequeños, la reacción en cadena de la polimerasa (PCR) en muestras orofaríngeas detectaron *K. kingae* en 2 pacientes, mientras que en el tercero no se identificó el agente causal (tabla 1). En el grupo de niños mayores se identificaron bacterias diferentes en cada caso: *Aggregatibacter aphrophilus* (n=1) en cultivo de líquido articular, y *Bartonella henselae* (n=1) y *Brucella melitensis* (n=1) mediante análisis inmunoenzimático (ELISA). En niños mayores, se adaptaron regímenes de antibioterapia específica para el agente involucrado—doxiciclina + rifampicina (16 semanas) para la brucelosis, y ceftriaxona seguida de levofloxacin (6 semanas) para la infección por *A. aphrophilus*— con base en las pruebas de sensibilidad. En el caso de *B. henselae* no se adaptó el tratamiento antibiótico, ya que el paciente presentó resolución clínica y radiológica completa con flucloxacilina + gentamicina. Todos los pacientes tuvieron una evolución favorable y libre de secuelas durante el seguimiento (media: 11,7 meses) (tabla 1).

## Discusión

Hemos descrito 6 casos de sacroileítis, correspondiendo a 0,67 casos por año. Esta incidencia es comparable a la descrita en una serie más amplia publicada por Donzelli et al., quienes reportaron 16 casos en una revisión de un período de 25 años (0,64 casos/año). Otro hallazgo consistente con su serie fue la distribución bifásica de edad observada en nuestro estudio, con 3 niños de menos de 4 años y 3 niños de 7-14 años de edad.

Dada la inespecificidad de la presentación clínica y los hallazgos de laboratorio en la SIP, es importante mantener un índice elevado de sospecha para este diagnóstico. Con frecuencia, las pruebas específicas para la articulación sacroilíaca son positivas<sup>2-4</sup>, pero se emplean de manera poco consistente en la exploración física debido al bajo índice de sospecha<sup>1</sup>. Una mayor concienciación de la importancia de esta prueba en la evaluación sistemática del

dolor de espalda, especialmente en niños mayores, podría contribuir a un diagnóstico más temprano. Por otro lado, en niños muy pequeños la evaluación clínica es particularmente complicada y el test de FABER casi nunca se puede realizar, y la cojera y el dolor al cargar peso son los síntomas inespecíficos referidos más frecuentemente<sup>7</sup>. Sin embargo, en nuestra serie el test de FABER fue positivo en los 4 casos en los que se llevó a cabo, incluyendo 2 niños pequeños.

La creciente accesibilidad de la RM en los últimos años ha mejorado el proceso diagnóstico, reportándose una sensibilidad del 95% y una especificidad del 100%<sup>1</sup>. Esta técnica permite un diagnóstico más precoz sin exponer al paciente a radiación, además de ofrecer una buena visualización de la compleja anatomía de la articulación sacroilíaca y poder detectar la presencia de líquido en la articulación sacroilíaca, edema de la médula ósea, abscesos en tejidos blandos y afectación espinal<sup>1,6</sup>. La gammagrafía ósea es menos sensible, especialmente si se realiza al inicio del cuadro, y no puede detectar abscesos locales<sup>3,6,10</sup>.

La realización de pruebas específicas para agentes menos frecuentes fue crucial en la identificación del microorganismo causal. La dependencia en el hemocultivo para identificar el agente etiológico se ha cuestionado ampliamente en la literatura, ya que las tasas de positividad oscilan entre el 27 y el 50%<sup>2,4,6,10</sup>. Como alternativa, se puede contemplar el cultivo de muestras de aspirado de líquido articular, pero su bajo rendimiento diagnóstico y los riesgos asociados con la cirugía y la anestesia descartan su indicación, especialmente en niños pequeños<sup>5,6</sup>. En efecto, en nuestra serie todos los hemocultivos fueron negativos, y no se aisló *S. aureus* de ninguna de las muestras, a pesar de ser el agente etiológico reportado con mayor frecuencia en todas las demás series<sup>2,4</sup>, así como en nuestro hospital en relación con otras infecciones osteoarticulares. Sorprendentemente, en el caso 3 se aisló *A. aphrophilus* del líquido sinovial. A nuestro conocer, solo hay otro caso publicado de sacroileítis causada por esta bacteria, que se dio en un paciente adulto<sup>11</sup>. El régimen óptimo de antibioterapia para este agente etiológico no se ha establecido, aunque teniendo en cuenta los datos de sensibilidad a antimicrobianos, nuestro paciente fue tratado con ceftriaxona por vía intravenosa seguida de levofloxacin oral, con mejoría de la clínica.

*K. kingae* ha emergido como un agente común en las infecciones osteoarticulares en niños menores de 4 años<sup>9</sup>. Las pruebas específicas de PCR en muestras orofaríngeas se consideran un método fiable para la detección de *K. kingae* en las infecciones osteoarticulares, particularmente en casos en los que no se puede realizar aspiración de líquido sinovial. Aunque no pudimos descartar la posibilidad de una mera colonización, cabe asumir que este fue el agente etiológico de la SIP.

La sacroileítis es la forma predominante de afección ósea en la brucelosis, con una incidencia de entre el 4,8 y 48,7% en la población pediátrica<sup>12,13</sup>. Su diagnóstico es difícil debido a la inespecificidad de su clínica y la baja sensibilidad del hemocultivo, especialmente en presentaciones subagudas y crónicas, con una tasa de positividad global que oscila entre el 15 y el 70% a pesar del uso de distintas técnicas especialmente refinadas para su diagnóstico<sup>14-16</sup>. Además,

las pruebas serológicas para la brucelosis y las pruebas específicas de PCR desarrolladas recientemente han mejorado la sensibilidad del diagnóstico<sup>16</sup>. Aunque actualmente esta infección es menos común en Portugal<sup>17</sup>, hay que tenerla en consideración, especialmente en áreas rurales, donde hay contacto con ovejas en la agricultura, y en casos con evolución tórpida. Según la mayoría de las guías publicadas, el tratamiento con doxiciclina + rifampicina con gentamicina es efectivo<sup>18,19</sup>.

Se ha demostrado que *B. henselae* puede ser un agente etiológico de la osteomielitis<sup>20,21</sup>. En estos casos, lo usual es que el hemocultivo y el cultivo de biopsia de hueso sean negativos, por lo que el diagnóstico requiere técnicas moleculares de amplificación o de serología, tales como la inmunofluorescencia indirecta (IFI) y el enzimoimmunoanálisis (ELISA), que se emplean para detectar anticuerpos frente a *B. henselae* en sangre<sup>20</sup>. La seroconversión confirma la infección, como fue el caso en nuestro paciente. No obstante, para cuando se confirmó la infección por *Bartonella*, nuestro paciente ya estaba asintomático, y el tratamiento antibiótico no se modificó. Aunque el tratamiento antibiótico recomendado en casos de infecciones osteoarticulares asociadas a *Bartonella* es la politerapia con doxiciclina + rifampicina o cotrimoxazol, es posible que el tratamiento con gentamicina contribuyera a esta mejoría<sup>22,23</sup>.

## Conclusión

No obstante el reducido tamaño muestral de nuestro estudio, nuestros hallazgos ponen de relieve el bajo rendimiento del hemocultivo para el diagnóstico de la SIP pediátrica. En consecuencia, resaltan también la necesidad de mantener un alto índice de sospecha para agentes atípicos y del uso precoz de métodos diagnósticos apropiados, incluyendo pruebas de imagen, serología y PCR en muestras de sangre, así como de antibioterapia efectiva. Todo esto parece especialmente importante en niños mayores, en los cuales se observó un curso más inespecífico e indolente que resultó en un retraso diagnóstico mayor y un tratamiento más prolongado.

## Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

## Bibliografía

- Ghedira Besbes L, Haddad S, Abid A, Ben Meriem C, Gueddiche MN. Pyogenic sacroiliitis in children: two case reports. *Case Rep Med*. 2012;2012:1–4.
- Molinos Quintana A, Morillo Gutiérrez B, Camacho Lovillo MS, Neth O, Obando Santaella I. Pyogenic sacroiliitis in children – a diagnostic challenge. *Clin Rheumatol*. 2011;30:107–13.
- Srinivasan S, Miller C, Akhras N, Blackwood AR. Pediatric pyogenic sacroiliitis and osteomyelitis. *Infect Dis Rep*. 2012;4:18.
- Wada A, Takamura K, Fujii T, Yanagida H, Suriyamorn P. Septic sacroiliitis in children. *J Pediatr Orthop*. 2008;28:488–92.
- Taylor ZW, Ryan DD, Ross LA. Increased incidence of sacroiliac joint infection at a children's hospital. *J Pediatr Orthop*. 2010;30:893–8.
- Donzelli A, Samara E, Spyropoulou V, Juchler C, Ceroni D. Pediatric sacroiliitis: clinical and microbiologic differences between infants and children-adolescents. *Pediatr Infect Dis J*. 2017;36:631–4.
- Leroux J, Bernardini I, Grynberg L, Grandguillaume C, Michelin P, Ould Slimane M, et al. Pyogenic sacroiliitis in a 13-month-old child. *Medicine (Baltimore)*. 2015;94:e1581.
- Gutierrez K. Bone and joint infections in children. *Pediatr Clin North Am*. 2005;52:779–94.
- Ceroni D, Dubois-Ferriere V, Cherkaoui A, Gesuele R, Combesure C, Lamah L, et al. Detection of *Kingella kingae* osteoarticular infections in children by oropharyngeal swab PCR. *Pediatrics*. 2013;131:e230–5.
- Wu MS, Chang SS, Lee SH, Lee CC. Pyogenic sacroiliitis – A comparison between paediatric and adult patients. *Rheumatology*. 2007;46:1684–7.
- Fernando SA, Gottlieb T. *Aggregatibacter aphrophilus* sacroiliitis following gastroscopy in a young sportsman. *Clin J Sport Med*. 2017;27:e3–5.
- Dashti AS, Karimi A. Skeletal involvement of *Brucella melitensis* in children: a systematic review. *Iran J Med Sci*. 2013;38:286–92.
- Topal Y, Topal H, Senel S. Brucella sacroiliitis in thalassemia major. *Indian J Pediatr*. 2014;81:1394.
- Mangalgi S, Sajjan A. Comparison of three blood culture techniques in the diagnosis of human brucellosis. *J Lab Physicians*. 2014;6:14.
- Navarro E, Escribano J, Fernández J, Solera J. Comparison of three different PCR methods for detection of *Brucella* spp. in human blood samples. *FEMS Immunol Med Microbiol*. 2002;34:147–51.
- Çiftçi A, İça T, Savaşan S, Sareyyüpoğlu B, Akan M, Diker KS. Evaluation of PCR methods for detection of *Brucella* strains from culture and tissues. *Trop Anim Health Prod*. 2017;47:755–63.
- Pelerito A, Coredira R, Matos R, Santos M, Soeiro S, Nuncio S. Brucelose humana: análise retrospectiva de casos clínicos suspeitos de infecção entre 2002 e 2013. *Bol Epidemiológico Observações*. 2014;3:19–21.
- Yousefi-Nooraie R, Mortaz-Hejri S, Mehrani M, Sadeghipour P. Antibiotics for treating human brucellosis. *Cochrane Database Syst Rev*. 2012. CD007179.
- Alavi SM, Alavi L. Treatment of brucellosis: a systematic review of studies in recent twenty years. *Casp J Intern Med*. 2013;4:636–41.
- Grossi O, Denoyel GA, Redon H, Caignon JM, Génereau T, de Faucaud P. Challenges in the diagnosis of culture negative vertebral osteomyelitis in adults: case of *Bartonella henselae* infection. *Joint Bone Spine*. 2013;80:671–3.
- Krause R, Wenisch C, Fladerer P, Daxböck F, Krejs GJ, Reisinger EC. Osteomyelitis of the hip joint associated with systemic cat-scratch disease in an adult. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis*. 2000;19:781–3.
- Rolain JM, Brouqui P, Koehler JE, Maguina C, Dolan MJ, Raoult D. Recommendations for treatment of human infections caused by *Bartonella* species. *Antimicrob Agents Chemother*. 2004;48:1921–33.
- Margileth A. Antibiotic therapy for cat-scratch disease: clinic study of therapeutic outcome in 268 patients and a review of the literature. *Pediatr Infect Dis J*. 1992;11:474–8.