

Seudotumor inflamatorio multicéntrico

Carlos Medina-Achirica, Carlos Gutiérrez de la Peña, Julio Gómez Menchero, Estibaliz Gutiérrez Cafranga, Manuel López Hurtado, Javier Gil Quiros y Francisco Mateo Vallejo
Servicio de Cirugía General. Hospital SAS. Jerez de la Frontera. Cádiz. España.

Resumen

Elseudotumor inflamatorio es un proceso no neoplásico caracterizado por un crecimiento irregular de células inflamatorias. Puede originarse en cualquier lugar del organismo y en la mayoría de los casos presenta un asentamiento local único y de características benignas.

Presentamos el caso de un varón de 51 años en el que se objetivó de forma accidental un nódulo pulmonar solitario. Se llevó a cabo una lobectomía pulmonar derecha, y el estudio anatomopatológico llevó al diagnóstico deseudotumor inflamatorio. Posteriormente se desarrollaron tumores en el pulmón contralateral y a nivel cervical; este último se comportó de manera muy agresiva.

En nuestra revisión bibliográfica no hemos encontrado dicha asociación, motivo de nuestra publicación.

Palabras clave: *Seudotumor inflamatorio. Multicéntrico. Corticoides.*

MULTICENTRIC INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR

Inflammatory pseudotumor is a non-neoplastic process characterized by irregular growth of inflammatory cells. This type of tumor can arise in any part of the body; most are confined to a single site and are benign.

We present the case of a 51-year-old man in whom a solitary pulmonary nodule was detected as an incidental finding. Right pulmonary lobectomy was performed and histopathological analysis led to a diagnosis of inflammatory pseudotumor. The patient subsequently developed tumors in the contralateral lung and cervix, the latter being highly aggressive.

We found no reports of this association in the literature, prompting the present case report.

Key words: *Inflammatory pseudotumor. Multicentric. Corticosteroids.*

Introducción

Elseudotumor inflamatorio está considerado como un proceso no neoplásico constituido por la proliferación de células irregulares plasmáticas maduras, acompañadas o no de linfocitos, distribuidas en el seno de un tejido fibroso estromal¹.

Elseudotumor inflamatorio fue descrito por primera vez por Brunn² en 1939, y también se lo ha denominado histiocitoma, granuloma de células plasmáticas, xantoma, etc. Asienta con mayor frecuencia en el pulmón, y el diagnóstico se basa en el estudio anatomopatológico. Histológicamente, se describe como un tumor de características benignas, que en escasas ocasiones infiltra es-

tructuras vecinas o presenta desarrollo multifocal³. El tratamiento de elección es la escisión completa.

A continuación presentamos el caso de uno de estos tumores, en un varón al que se diagnosticó un nódulo pulmonar solitario de manera accidental; se estableció el diagnóstico deseudotumor inflamatorio, con posterior desarrollo de tumores en el pulmón contralateral y a nivel cervical. En nuestra revisión bibliográfica no hemos encontrado dicha asociación, motivo de nuestra publicación.

Caso clínico

Presentamos el caso de un varón de 51 años, no fumador, entre cuyos antecedentes personales destacaba la implantación de un marcapasos definitivo por un síndrome de bradicardia/taquicardia.

Al realizarle una radiografía de tórax de control, se detectó un nódulo pulmonar de aproximadamente 4 cm en el lóbulo pulmonar superior derecho.

La exploración clínica era normal, y presentaba una buena ventilación en ambos campos pulmonares. La analítica no presentaba ninguna alteración y la fibrobroncoscopia fue informada como normal. El informe de la tomografía computarizada puso de manifiesto una tumoración de

Correspondencia: Dr. C. Medina Achirica.
José Joaquín Muñoz Vela, 29. 11500 Puerto de Santa María.
Cádiz. España.
Correo electrónico: atxiricacm@terra.es

Manuscrito recibido el 25-7-2005 y aceptado el 11-10-2006.



Fig. 1. Punción de nódulo pulmonar que resultó insuficiente para establecer el diagnóstico.



Fig. 2. Resonancia magnética que muestra tumoración orofaríngea y nasofaríngea, con obliteración del espacio aéreo.

3 cm en el lóbulo superior derecho, sólida y lobulada, indicio de carcinoma, sin adenopatías locales. En la tomografía computarizada craneal no se apreciaron alteraciones relevantes y la punción-aspiración con aguja fina (PAAF) del nódulo pulmonar resultó negativa para células neoplásicas (fig. 1).

Con diagnóstico de nódulo pulmonar solitario, fue intervenido quirúrgicamente mediante lobectomía superior derecha. El postoperatorio transcurrió sin incidencias destacables. El estudio anatomopatológico mostró unseudotumor inflamatorio con linfadenitis reactiva.

A los 13 meses de la intervención, el paciente acudió de nuevo a nuestro hospital por notarse una tumoración cervical y disnea a pequeños esfuerzos. A la exploración destacaba una tumoración submandibular derecha dura, adherida a planos profundos, de aproximadamente 3

4 cm de diámetro. La resonancia magnética puso de manifiesto una tumoración orofaríngea y nasofaríngea, con obliteración del espacio aéreo (fig. 2). Mediante biopsia incisional, se confirmó histológicamente que dicha lesión correspondía a un foco extrapulmonar delseudotumor (fig. 3). El tumor se comportó de forma agresiva infiltrando la porción cervical del esófago y la vía aérea, clínicamente manifestada como disfagia e insuficiencia respiratoria, por lo que requirió la realización de gastrostomía y traqueostomía permanente. En posteriores radiografías de control se detectó la aparición de nuevas masas pulmonares, una localizada en el lóbulo superior izquierdo y otra paramediastínica derecha. Se desestimó la opción quirúrgica y se inició tratamiento farmacológico con corticoides e inmunosupresores; el paciente respondió al tratamiento y se objetivó una disminución del tamaño de sus procesos tumorales.

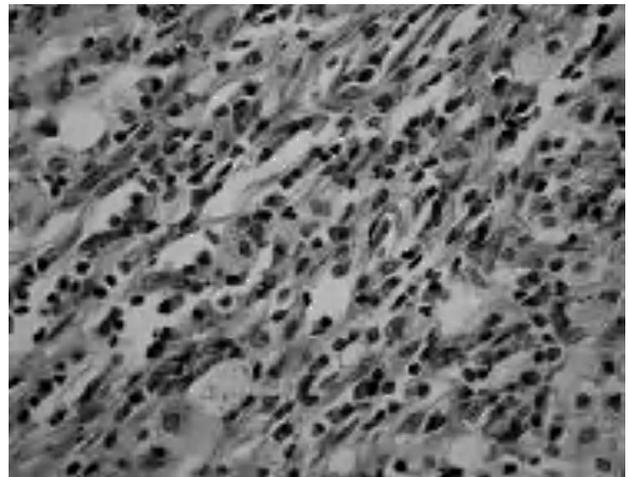
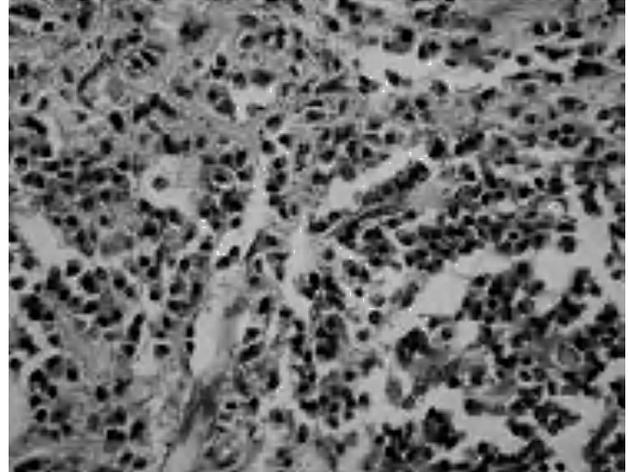


Fig. 3. Imágenes histológicas con tinción H-E (40) de la lesión pulmonar (A) y de la lesión cervical (B), ambas similares, donde se observa proliferación heterogénea mesenquimal de predominio fibroblástico e inflamatorio a expensas de células plasmáticas y linfocitos maduros.

Discusión

La etiopatogenia delseudotumor inflamatorio es desconocida, y hay diversas hipótesis que proponen un origen autoinmunitario o infeccioso como causa desencadenante^{4,5}.

Su verdadera prevalencia es desconocida, y puede originarse en cualquier órgano o tejido, aunque la localización pulmonar es la más frecuente⁶. No hemos encontrado descrita en la literatura mundial la asociación entre presentación pulmonar y orofaríngea con infiltración de esófago y tráquea, como en el caso de nuestro paciente.

Suele ser unifocal y rara vez infiltra estructuras vecinas; la clínica varía en función del lugar de origen, aunque en la mayoría de las ocasiones no presenta síntomas.

Radiológicamente, este tipo de tumores suele presentarse como una lesión bien delimitada⁷.

Sólo en el 14% de los casos existe confirmación diagnóstica mediante la histología (con el material obtenido mediante fibrobroncoscopia, PAAF o *tru-cut*)⁸ previa a la

cirugía, y en la mayoría de las ocasiones es necesario el estudio anatomopatológico de la pieza quirúrgica.

El tratamiento de elección es la escisión radical completa con márgenes adecuados. En los pocos casos en que se produzca recurrencia, volver a reseca sigue siendo el tratamiento de elección⁶.

El pronóstico es excelente cuando se lleva a cabo la exéresis completa del tumor, ya que es raro que infiltre estructuras vecinas o haya metástasis. El comportamiento más agresivo en estos tumores parece estar en relación con ciertas características anatomopatológicas, como un incremento de la celularidad, pleomorfismo nuclear, actividad mitótica, necrosis focal e invasión vascular⁹. Nuestro caso presentaba un tumor cervical de comportamiento muy agresivo, con una precoz infiltración esofágica y de vía aérea, lo que causó una disfagia casi absoluta y dificultad respiratoria. Se consideró como inextirpable, lo que motivó la realización de una gastrotomía de alimentación y traqueostomía definitiva.

En los casos en que no está indicada la intervención quirúrgica, el tratamiento médico y el tratamiento sintomático de las posibles complicaciones parece constituir la opción más adecuada. En determinados casos, la utilización de corticoides e inmunosupresores se ha acompañado de una buena respuesta¹⁰, con buenos resultados a corto y medio plazo, como es el caso de nuestro

paciente, que tras 24 meses presenta una buena calidad de vida y ha iniciado la alimentación oroenteral.

Bibliografía

1. Weiss SW. Histopatological typing of soft tissue tumors. 2.^a ed. New York: Springer-Verlag; 1994.
2. Brunn H. Two interesting benign lung tumours of contradictory histopathology: remarks on the necessity of maintaining chest tumor registry. *J Thorac Surg.* 1939;9:119-31.
3. Travis WD, Colby T, Corrin B, Shimosato Y, Brambilla E. Histological typing of lung and pleural tumors. 3.^a ed. Berlin: Springer-Verlag, 1999.
4. Arber DA, Weiss LM, Chang KI. Detection of Epstein-Barr virus in inflammatory pseudotumor. *Sem Diagn Pathol.* 1998;15:155-60.
5. Fernández A, Mosteiro M, Corbacho D, Acuña A, Piñeiro L. Pseudotumor inflamatorio pulmonar: Presentación de dos casos y revisión de la literatura. *An Med Interna.* 1997;14:469-72.
6. Cerfolio RJ, Allen MS, Nascimento AG, Deschamps C, Trastek VF, Miller DL, et al. Inflammatory pseudotumor of the lung. *Ann Thorac Surg.* 1999;67:933-6.
7. Agrons GA, Rosado ML, Kireczyk WM, Coran RM, Stocker JT. Pulmonary inflammatory pseudotumor: radiologic features. *Radiology.* 1998;206:511-8.
8. Montini F, Mascitelli E, Beltrami V. Inflammatory pseudotumor of the lung. *Minerva Chir.* 1995;50:921-4.
9. Girard F, Kambouchener M, Maugendre, Naccache JM, De-Meyer Cristiani R, Battesti JP, et al. [Inflammatory pseudotumor of the lung with severe course]. *Rev Mal Respir.* 2001;18:541-4.
10. Díez JM, Fernández E, Sáez G, et al. Seudotumor inflamatorio multifocal del pulmón con buena respuesta a corticoides. *Arch Bronconeumol.* 1998;34:102-4.