

OBSERVACIÓN CLÍNICA

Seudotumor inflamatorio hepático múltiple y bacteriemia por *Enterococcus durans*

Francisco Jover Díaz^{a,*}, Coral Martín González^b, María José Mayol Belda^c y José María Cuadrado Pastor^a

^aUnidad de Enfermedades Infecciosas, Hospital Clínico Universitario de San Juan, Alicante, España

^bServicio de Microbiología, Hospital Clínico Universitario de San Juan, Alicante, España

^cServicio de Anatomía Patológica, Hospital Clínico Universitario de San Juan, Alicante, España

Recibido el 2 de junio de 2008; aceptado el 15 de septiembre de 2008

PALABRAS CLAVE

Seudotumor inflamatorio hepático;
Enterococcus;
Bacteriemia

Resumen

Losseudotumores inflamatorios son lesiones raras, benignas y con diferentes localizaciones. Habitualmente asocian fiebre, dolor y efecto masa, y con frecuencia pueden diagnosticarse erróneamente como neoplasias. Losseudotumores hepáticos son especialmente infrecuentes, con menos de 150 casos descritos hasta 2007 tras la primera descripción de Pack y Baker en 1953. Describimos el caso de un paciente con sospecha de abscesos hepáticos múltiples, diagnosticado finalmente deseudotumor inflamatorio hepático mediante biopsia de la lesión. Recibió tratamiento antibiótico prolongado hasta la resolución del cuadro. Se discutirá el manejo clínico y el diagnóstico diferencial.

© 2008 Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Inflammatory pseudotumor of the liver;
Enterococcus;
Bacteremia

Multiple inflammatory liver pseudotumors and *Enterococcus durans* bacteremia

Abstract

Inflammatory pseudotumors are rare benign lesions that can occur throughout the body. These masses are usually associated with fever, pain, and mass effect, and are frequently mistaken for malignant neoplasms. Liver pseudotumors are especially rare, with 150 cases reported up to 2007, since the original report of Pack and Baker in 1953. We describe the case of a patient with suspected multiple hepatic abscesses, who was finally diagnosed with an inflammatory pseudotumor by percutaneous biopsy. The patient received

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: fjoerdiaz@coma.es (F. Jover Díaz).

prolonged antibiotic therapy, with complete resolution of the pseudotumor. The differential diagnosis and management of this entity is discussed.

© 2008 Elsevier España, S.L. All rights reserved.

El seudotumor inflamatorio hepático fue descrito por primera vez en 1953 por Pack y Baker¹. Ha recibido numerosas denominaciones, como granuloma de células plasmáticas, lesión seudosarcomatosa o tumor miofibroblástico inflamatorio. Es una entidad poco frecuente, de naturaleza inflamatoria y de etiología desconocida; se considera de naturaleza benigna. Son lesiones generalmente únicas, de predominio en el lóbulo hepático derecho (60%) y tamaño variable (1–25 cm), aunque ocasionalmente pueden ser múltiples^{2,3}. Presentamos un caso de seudotumor inflamatorio múltiple hepático en un paciente con bacteriemia por *Enterococcus durans* que se resolvió con tratamiento antibiótico.

Observación clínica

Paciente de 47 años de edad, sin antecedentes médicos de interés, que acude a la consulta por presentar un cuadro de fiebre persistente de 15 días de evolución y escalofríos francos de predominio vespertino. En la exploración física destacaba una temperatura de 39 °C y hepatomegalia dolorosa. Respecto a las exploraciones complementarias, en la analítica se detectan los siguientes parámetros: leucocitos 9,4 #* 10³/μl (73,8% neutrófilos), hemoglobina 10,6 g/dl, hematocrito 32,8%, volumen corpuscular medio 94 fl, plaquetas 541 10e9, AST 43,0 U/l, ALT 45,0 U/l, bilirrubina total 0,50 mg/dl, GGT 174,0 U/l, fosfatasa alcalina 185 U/l, hipoalbuminemia 2,94 g/dl, hipergammaglobulinemia (α1-globulinas 0,7 g/dl, α2-globulinas 1,3 g/dl, β-globulinas 1,8 g/dl) y elevación de la proteína C reactiva (PCR) en 2,75 mg/dl. Se realizó una tomografía computarizada (TC) abdominal (fig. 1), que mostró la presencia de varias lesiones focales con valores de atenuación superior al líquido, especialmente en el lóbulo hepático izquierdo (LHI), la de mayor tamaño de 6 cm en el área de la cúpula hepática. Estas lesiones plantean el diagnóstico diferencial entre abscesos y metástasis hepáticas. En la microbiología destacaban en el hemocultivo una tinción de Gram en la que se observan cocos grampositivos (estreptococo). Se aísla *E. durans* en un hemocultivo. El urocultivo fue negativo. La serología para el virus de la inmunodeficiencia humana fue negativa. Se inició tratamiento antibiótico intravenoso con ertapenem 1 g/día según el antibiograma. En la ecocardiografía destacaba la ausencia de signos de endocarditis. Los resultados de la colonoscopia mostraron la existencia de un pólipo de 3 cm, que se extirpó. La anatomía patológica del mismo se informó como adenoma tubulovelloso con focos de carcinoma insitu. Se realizó una biopsia ecodirigida de la lesión focal hepática en el LHI y se obtuvo un cilindro de muestra, cuyo análisis demostró la presencia de datos morfológicos compatibles con seudotumor inflamatorio (tumor miofibroblástico inflamatorio). El cultivo realizado durante el tratamiento antibiótico fue negativo. Se mantuvo el tratamiento antibiótico intravenoso durante un mes, y se

comprobó una buena evolución por lo que se cambió a moxifloxacino 400 mg/día, por vía oral, durante 4 semanas más. Se realizó un control radiológico mediante TC, que demostró la desaparición de las lesiones hepáticas tras 2 meses de tratamiento antibiótico.

El seudotumor inflamatorio es una entidad rara de naturaleza inflamatoria, considerada una lesión formadora de tipo reparativo-inflamatorio o reactivo de comportamiento benigno, que suele afectar a niños o adultos jóvenes, sobre todo varones⁴. Se han descrito aproximadamente 150 casos en la literatura médica occidental y otros 100 más en la literatura médica japonesa, ya que parece haber una mayor incidencia en razas no caucásicas^{3,5}. El hígado es la segunda localización más frecuente⁴ y representa aproximadamente el 1% de todos los tumores benignos hepáticos. La etiología del seudotumor inflamatorio es desconocida y, aunque se ha intentado relacionar con infecciones bacterianas, nunca se ha podido establecer una conexión clara. Horiuchi⁶ planteó que algunos microorganismos procedentes de alimentos, de procesos infecciosos (apendicitis, colecistitis, colangitis ascendente) o inflamatorios (enfermedad de Crohn) podrían diseminarse hacia el parénquima hepático a través del sistema portal y desencadenar una lesión inflamatoria atípica. Los gérmenes implicados en su patogenia han sido: *Klebsiella pneumonia*, *Escherichia coli*, virus de Epstein-Barr, *Actinomyces*, *Bacteroides caccae* y cocos grampositivos (estreptococos beta hemolíticos). En nuestro caso se identificó *E. durans* en los hemocultivos. Otros mecanismos patogénicos propuestos son los siguientes: reacción inmune, hemorragia hepática y necrosis, tromboflebitis de las venas hepáticas y reacciones locales a los ácidos biliares. Los síntomas más frecuentes son fiebre prolongada —a veces, como en este caso, la única sintomatología— sudoración nocturna, anorexia, cefalea, astenia, dolor abdominal, náuseas y pérdida de peso. Puede aparecer hepatosplenomegalia, masa en el hipocondrio derecho e ictericia, como resultado de la compresión de la vía biliar o por hipertensión portal. Entre las alteraciones analíticas, hay que mencionar un incremento de la velocidad de sedimentación globular y PCR, leucocitosis, anemia, hipertransaminasemia e hipergammaglobulinemia. Es importante destacar que el diagnóstico debe basarse en la biopsia de la lesión, ya que la citología obtenida mediante punción-aspiración con aguja fina ha llevado a confusiones diagnósticas con lesiones malignas. Microscópicamente, los hallazgos anatomopatológicos típicos son la presencia de miofibroblastos envueltos en tejido colágeno densamente hialinizado, el infiltrado inflamatorio con predominio de linfocitos y células plasmáticas policlonales, los cambios de tipo reparativo con fibrosis variable, las áreas de necrosis celular y, ocasionalmente, una reacción granulomatosa⁴. Los hallazgos radiológicos son inespecíficos, aunque hay algunos patrones que pueden ayudar al diagnóstico. La ecografía puede mostrar lesiones bien circunscritas con áreas de hipo/hiperecogenicidad. Recientemente, la

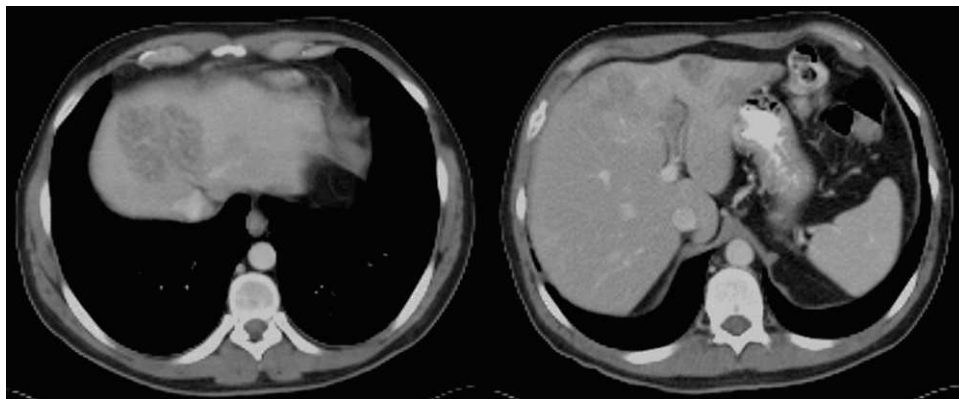


Figura 1 Se observa la presencia de varias lesiones focales con valores de atenuación superior al líquido, especialmente en LHI, la de mayor tamaño de 6 cm. en área de cúpula hepática.

ecografía con utilización de contraste de segunda generación se ha demostrado eficaz en la detección de la hipervascularización arterial como criterio diagnóstico de carcinoma hepatocelular en lesiones ocupantes de espacio (LOE) de pacientes con hepatopatía⁷. La TC es la prueba de imagen más empleada. En un estudio realizado por Fukuja et al⁸ la mayoría de las lesiones mostraban una captación variable en la fase portal, con mayor realce en las fases tardías, lo que lo diferencia del hepatocarcinoma. Algunos estudios recientes han señalado ciertas características específicas mediante la realización de una resonancia magnética⁹. En las imágenes obtenidas en T1 las lesiones se muestran relativamente hipointensas respecto al resto del parénquima, mientras que en T2 son isointensas o hiperintensas. Tras la administración de gadolinio, se detecta un realce fugaz periférico de la lesión como patrón más frecuente en T1 y T2. La tomografía por emisión de positrones, que utiliza fluorodeoxiglucosa como radiotrazador, identifica con bastante precisión los hepatocarcinomas menos diferenciados sobre los que debe establecerse el diagnóstico diferencial con elseudotumor inflamatorio¹⁰. Se ha demostrado cierta correlación anatomopatológica con las técnicas de imagen; así, áreas de hiperecogenicidad en ecografía y de baja atenuación en la TC se corresponden con una infiltración celular y zonas tanto de elevada ecogenicidad como de atenuación con áreas de fibrosis. El diagnóstico diferencial debe establecerse con lesiones malignas (colangiocarcinoma, hepatocarcinoma, linfoma o metástasis), enfermedades granulomatosas (sarcoidosis y tuberculosis) y abscesos hepáticos (ausencia de nivel hidroaéreo, necrosis licuefactiva del parénquima hepático y de colecciones perihepáticas, mientras que elseudotumor inflamatorio es una lesión de naturaleza sólida)^{2,4}. El manejo terapéutico de elección ha sido tradicionalmente quirúrgico, con escasas recurrencias, aunque también se ha descrito una regresión espontánea. El abordaje conservador con antibióticos (cefalosporinas de tercera generación y fluoroquinolonas), antiinflamatorios no esteroideos y drenaje descompresivo de la vía biliar ha demostrado ser efectivo. El uso de esteroides en dosis bajas ha demostrado ser útil en casos con claros

síntomas sistémicos asociados³. Actualmente la cirugía se reserva para casos sin diagnóstico definitivo por biopsia, casos con elevación de marcadores tumorales o hepatopatía crónica viral de base. En general, el pronóstico es bueno, aunque en ocasiones sigue un curso crónico más insidioso y prolongado con recurrencias locales tras varios años de evolución. Los escasos fallecimientos se debieron a complicaciones secundarias a la localización de la lesión (obstrucción biliar o hipertensión portal), invasión vascular y transformación maligna, lo que parece contradictorio con la naturaleza puramente inflamatoria o reactiva del proceso.

En conclusión, de este caso queremos destacar los siguientes aspectos: *a*) el carácter multifocal de la lesión; *b*) el aislamiento de *E. durans* en los hemocultivos como factor desencadenante, y *c*) la buena evolución clínica y radiológica con desaparición de las lesiones con tratamiento antibiótico.

Bibliografía

1. Pack GT, Baker HW. Total right hepatic lobectomy: report of a case. *Ann Surg.* 1953;138:53–8.
2. Weiss G, Ben-Ami Shor D, Schachter P. Inflammatory pseudotumor of the liver: an unlikely cause of multiple hepatic lesions. *Isr Med Assoc J.* 2007;9:894–5.
3. Koea JB, Broadhurst GW, Rodgers MS, McCall JL. Inflammatory pseudotumor of the liver: demographics, diagnosis, and the case for nonoperative management. *J Am Coll Surg.* 2003;196:226–35.
4. Fernández-Sabé N, Serrano T, Carratalà J. Inflammatory pseudotumor of the liver presenting as fever of unknown origin. *Med Clin (Barc).* 2001;116:358–9.
5. Mathiak G, Meyer-Pannwitz U, Mathiak M, Schroder S, Henne-Bruns D, Froschle G. Inflammatory pseudotumor of the liver: rare differential diagnosis of an unknown hepatic mass. Case report and review of the literature. *Langenbecks Arch Chir.* 1996;381:309–17.
6. Horiuchi R, Uchida T, Kojima T, et al. Inflammatory pseudotumor of the liver. *Cancer.* 1990;65:1583–90.
7. Gómez Rodríguez RA, Artaza Varasa T, González de Frutos C, Sánchez Ruano JJ, Repiso Ortega A, Pérez-Grueso Macías MJ,

- et al. Value of contrast-enhanced ultrasound in the diagnosis of hepatocarcinoma in focal lesions detected in patients with liver disease. *Gastroenterol Hepatol.* 2007;30:381–6.
8. Fukuja T, Honda H, Matsumata T, Kawanami T, Shimoda Y, Muranaka T, et al. Diagnosis of Inflammatory pseudotumor of the liver: value of CT. *AJR.* 1994;163:1087–91.
 9. Hirohashi S, Ueda K, Uchida H, Ono W, Takahama J, Takewa M, et al. Nondiffuse fatty change of the liver: discerning on MR images enhanced with ferumoxides-initial observations. *Radiology.* 2000;217:415–20.
 10. Iñarrairaegui M, Sangro B. Diagnosis of small hepatocellular carcinoma. *Gastroenterol Hepatol.* 2007;30:498–505.