

Litoptisis crónica idiopática

E. García Pachón^a, F. Grases^b, I. Padilla Navas^a, J.A. Gallego^c, B. Valero^d y V. Romero^a

^aSección de Neumología. Hospital General Universitario de Elche. Elche. Alicante.

^bLaboratorio de Investigación en Litiasis Renal. Universitat de les Illes Balears. Palma de Mallorca. Islas Baleares. España.

^cServicio de Radiodiagnóstico. Hospital General Universitario de Elche. Elche. Alicante.

^dServicio de Medicina Interna. Hospital General Universitario de Alicante. Alicante. España.

La litoptisis (expectoración de piedras) es un hallazgo clínico muy infrecuente. Los broncolitos, secundarios en general a ganglios linfáticos peribronquiales calcificados, se pueden hallar en las exploraciones radiológicas o en la broncoscopia. Describimos el caso de un varón de 19 años con litoptisis, durante más de 6 meses, de cálculos bronquiales de hidroxipatita que refería expectoración de arenilla desde la infancia. A pesar de un extenso estudio diagnóstico clínico, radiológico y endoscópico, no se detectaron lesiones calcificadas en el tórax que pudieran explicar el origen de los broncolitos, por lo que se propone un mecanismo de formación similar al de los cálculos de otras localizaciones.

Palabras clave: Broncolitiasis. Broncolito. Expectorción. Hidroxipatita. Litoptisis.

Introducción

La litoptisis (literalmente, expectoración de piedras) consiste en la expectoración de cálculos bronquiales (broncolitos), que se definen como material calcificado en el interior del árbol traqueobronquial^{1,2}. Aunque el hallazgo de calcificaciones intratorácicas no es una rareza, la litoptisis, si bien ya fue descrita por Aristóteles y Galeno³, es muy infrecuente. En general, se considera que los broncolitos son el resultado de un proceso postinflamatorio en el cual un ganglio linfático peribronquial erosiona el interior de la vía respiratoria. Las causas más frecuentes son la tuberculosis y la histoplasmosis, pero existen otras situaciones que dan lugar a broncolitiasis, como la aspiración de tejido óseo o la calcificación *in situ* de un cuerpo extraño aspirado, la erosión por la extrusión de un cartilago bronquial calcificado y la silicosis^{4,5}. En pocas ocasiones se ha realizado el estudio mineralógico de estos cálculos, que están constituidos por calcio y fósforo.

Presentamos un caso de litoptisis de larga evolución, con descripción de los hallazgos mineralógicos, en el

Chronic Idiopathic Lithoptysis

Broncholiths, which usually arise from calcified peribronchial lymph nodes, can be found by radiography or bronchoscopy. We describe the case of a 19-year-old man who had experienced lithoptysis of bronchial hydroxyapatite calculi for over 6 months and who reported having sandy expectoration since childhood. Exhaustive clinical, radiographic, and endoscopic diagnostic studies detected no calcified lesions in the thorax that could explain the origin of the broncholiths. Therefore, we propose that broncholiths may form by mechanisms similar to those involved in calculi formation in other locations.

Key words: Broncholithiasis. Broncholiths. Expectoration. Hydroxyapatite. Lithoptysis.

que no se pudo establecer el origen de los broncolitos a pesar de un extenso estudio diagnóstico, y proponemos los mecanismos que explicarían la formación de estos cálculos intrabronquiales.

Observación clínica

El paciente era un varón de 19 años de edad, que consultó por presentar, desde unos 6 meses antes, expectoración de "piedras" con el esputo. No era fumador ni tenía antecedentes de exposiciones de riesgo respiratorio. Recordaba desde su primera infancia la expulsión con la tos de mucosidad muy espesa en escasa cantidad que podía deshacer entre sus dedos hasta convertirla en arenilla. A los 13 años de edad la expectoración se hizo más líquida y muy abundante, y se producía especialmente tras los esfuerzos físicos. Por este motivo fue estudiado con radiografía de tórax y de senos paranasales, análisis general y espirometría, sin que se apreciara ninguna alteración. Los síntomas, inconstantes, persistieron durante años, pero con menor intensidad y generalmente tras el ejercicio físico, y duraban 2 o 3 días. Esta mucosidad podía contener pequeñas formaciones secas y muy densas que describía como arenilla. Se le prescribió tratamiento broncodilatador que el paciente abandonó al no percibir mejoría. En el momento de la consulta tenía expectoración moderada y, al forzarla tras una inspiración profunda, aparecían junto con el moco "piedras" de pequeño tamaño. De una de las expectoraciones se obtuvieron varios cálculos de forma esferoidal irregular y color verdoso (fig. 1) que se remitieron para análisis. La exploración física del paciente era normal. El hemograma y la bioquímica sérica, que incluyó el estudio de inmunoglo-

Correspondencia: Dr. E. García Pachón.
Sección de Neumología. Hospital General Universitario.
Cami de l'Almazara, 11. 03203 Elche. Alicante. España.
Correo electrónico: egpachon@hotmail.com

Recibido: 28-9-2004; aceptado para su publicación: 3-10-2004.

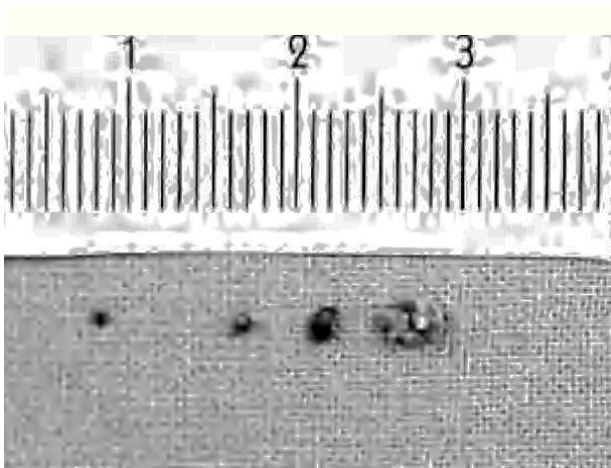


Fig. 1. Broncolitos obtenidos en una expectoración.

bulinas, de autoinmunidad y alfa-1-antitripsina, fueron normales. El análisis de orina era normal. No se produjo reacción en la prueba de la tuberculina. El estudio frente a neuroalergenos fue también negativo. El test del sudor fue normal. En las pruebas funcionales respiratorias (espirometría, volúmenes pulmonares estáticos y transferencia al monóxido de carbono) se obtuvieron valores en el intervalo de referencia. En la radiografía de tórax no se apreciaban alteraciones. En la broncoscopia no había lesiones endobronquiales ni se vieron broncolitos, aunque en el broncoaspirado se observó una formación redondeada oscura y sólida de menos de 1 mm. Los estudios microbiológicos y citológicos del broncoaspirado fueron negativos. Se realizó una tomografía axial computarizada (TAC) helicoidal de tórax con cortes de 1 mm, sin que se observara ninguna lesión de densidad ósea; tampoco había imágenes de bronquiectasias ni otras alteraciones. El estudio mineralógico de los broncolitos (microscopia estereoscópica y electrónica de barrido y microanálisis por energía dispersiva de rayos X) mostró hidroxipatita como componente mayoritario y la presencia de materia orgánica (fig. 2), con un patrón estructural igual al observado en los cálculos renales no infecciosos de hidroxipatita y en los sialolitos. Progresivamente, en los meses posteriores, disminuyó la cantidad de expectoración, que era muy espesa y se deshacía en forma de arenilla, sin la aparición de otros síntomas.

Discusión

En las publicaciones en España hemos encontrado un único caso de litoptisis⁶, que se produjo en uno de los 3 casos descritos de broncolitiasis⁶⁻⁸. Sin embargo, es posible que la frecuencia de broncolitiasis y litoptisis sea superior a la que se supone. En una serie de 25 pacientes a los que se les realizó broncoscopia por tos crónica refractaria al tratamiento, se detectó broncolitiasis en 2 de ellos⁹, y es conocido que la mayoría de los pacientes con broncolitiasis no refieren la existencia de litoptisis si no se les pregunta explícitamente. La clínica de la broncolitiasis se debe a la erosión, la irritación y la distorsión bronquiales causadas por los broncolitos. Pueden producir tos crónica, a veces con expectoración pu-

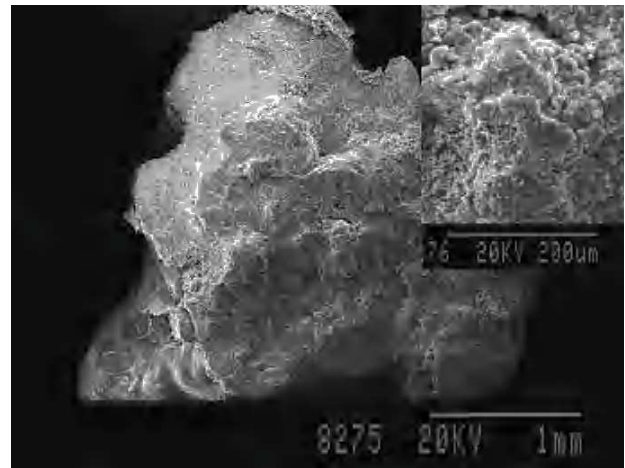


Fig. 2. Imagen de broncolito obtenida por microscopia electrónica de barrido. En el recuadro superior, a mayor aumento, se observa la presencia de hidroxipatita y de materia orgánica.

rulenta, hemoptisis, litoptisis, neumonías recurrentes y fístulas entre el bronquio y las estructuras mediastínicas adyacentes. En una serie de 95 pacientes con broncolitos visibles en la broncoscopia, los síntomas más frecuentes fueron la tos y la hemoptisis¹⁰. En 2 extensas series, sólo el 15% de los pacientes con broncolitiasis referían litoptisis^{1,10}. Los broncolitos expectorados varían de tamaño, desde "arenilla" hasta un cálculo de 135 g mencionado por Samson y Rossoff¹¹. Es interesante señalar que en varias series se describe la existencia de un diagnóstico previo de asma al presentar los pacientes tos, sibilancias y expectoración purulenta¹²⁻¹⁴. En el tratamiento de la broncolitiasis, la broncoscopia es efectiva en la extracción de los broncolitos libres y en muchos de los que están parcialmente adheridos a la pared bronquial¹⁰, aunque en ocasiones puede ser necesario el tratamiento con láser¹⁵ y, excepcionalmente, la cirugía¹⁶.

Cuando un paciente explica que expectora piedras, el hallazgo del origen de los broncolitos en la radiografía de tórax o en la TAC es habitualmente sencillo, y también es habitual que puedan verse directamente en la broncoscopia. La TAC, especialmente con cortes más finos de los convencionales, como se hizo en este caso, es muy sensible para detectar los bronquiólitos^{4,17,18}. En nuestro paciente no existían antecedentes de tuberculosis y no se produjo reacción a la prueba de la tuberculina, en la broncoscopia no se observaron broncolitos (aunque se obtuvo "arenilla" en el broncoaspirado) y la TAC realizada con secciones de 1 mm a lo largo de todo el tórax no demostró la existencia de calcificaciones, por lo que no hemos podido establecer el origen de los broncolitos en una calcificación intratorácica por un proceso previo.

La historia de expectoración con arenilla en la infancia y expulsión objetivada de cálculos durante meses en ausencia de una calcificación intratorácica es excepcionalmente infrecuente, pero podría explicarse por un mecanismo de formación de cálculos similar a la producción de urolitos o sialolitos^{19,20}, que tienen una estructura similar a la de los broncolitos de nuestro paciente. La

producción de cálculos en los líquidos orgánicos se debe a las características fisicoquímicas de éstos. Los líquidos biológicos (tanto la saliva como la orina, la sangre o el líquido intersticial) suelen estar en condiciones de sobresaturación y, por lo tanto, constituyen un sistema inestable con tendencia a la cristalización. Ésta no se produce por la presencia de inhibidores de la cristalización y por la renovación de los fluidos. Por otro lado, la cristalización se ve favorecida cuanto mayor sea la sobresaturación y por la presencia de inductores de la cristalización (llamados nucleantes heterógenos). La sangre y los líquidos intersticiales están sobresaturados de fosfatos cálcicos (hidroxiapatita). En el caso de la hidroxiapatita, los detritus celulares y otros restos orgánicos (como los residuos de bacterias) pueden actuar como nucleantes heterógenos muy efectivos^{19,20}.

Los escasos estudios previos sobre la composición de los broncolitos se limitaban a identificar la presencia de calcio y fósforo. En este caso se ha realizado un complejo estudio (microscopia estereoscópica y electrónica de barrido y microanálisis por energía dispersiva de rayos X) que ha permitido disponer por primera vez de información más amplia. Así, la composición y microestructura de los broncolitos encontrados en este caso son totalmente análogas a las de los cálculos renales de hidroxiapatita de origen no infeccioso y a las de los sialolitos. Por este motivo, sus mecanismos de formación han de ser muy parecidos, e implican factores relativos al déficit de inhibidores de la cristalización, presencia de materia orgánica y estasis líquida^{19,20}. La formación de arenilla en el árbol bronquial precisa, pues, el déficit de inhibidores, la presencia de líquido intraluminal durante tiempo prolongado (por exceso de filtración o defecto de reabsorción) y presencia de abundante materia orgánica (en este caso, mucoproteínas). En esta situación, la hidrodinámica del sistema dará lugar al desarrollo de las partículas de pequeño tamaño, que si quedan retenidas dan origen a un broncolito de mayor volumen. Cuando el broncolito tiene su origen en la calcificación de los ganglios, la importante cantidad de materia orgánica no reabsorbida y el flujo reducido pueden ser los desencadenantes principales de la calcificación, aunque se puede asociar también un déficit de inhibidores de la cristalización en el líquido linfático. En nuestro paciente, la ausencia de calcificaciones intratorácicas y los estudios microbiológicos negativos permiten apuntar a un

mecanismo de producción de los broncolitos similar al que da lugar a la producción, mejor conocida, de otros cálculos.

BIBLIOGRAFÍA

- Dixon GF, Donnenberg RL, Schonfeld SA, Whitcomb ME. Advances in the diagnosis and treatment of broncholithiasis. *Am Rev Respir Dis*. 1984;129:1028-30.
- Nollet AS, Vansteenkiste JF, Demedts MG. Broncholithiasis: rare but still present. *Respir Med*. 1998;92:963-5.
- Faber LP, Jensik RJ, Chawla SK, Kittle CF. The surgical implication of broncholithiasis. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1975;70:779-89.
- Seo JB, Song KS, Lee JS, Goo JM, Kim HY, Song JW, et al. Broncholithiasis: review of the causes with radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*. 2002;22:S199-S213.
- Antao VC, Pinheiro GA, Jansen JM. Broncholithiasis and lithoptysis associated with silicosis. *Eur Respir J*. 2002;20:1057-9.
- Carvajal Balaguera J, Mallagray Casas S, Martínez Cruz R, Dancusa Monge A. Fístula broncoesofágica y broncolitiasis. *Arch Bronconeumol*. 1995;32:184-7.
- Ruiz Martínez C, Pérez Trullén A, Aguirre Daban MC, Orcaestegui Candial JL, Suárez Pinilla FJ. Broncolitiasis secundaria a infección activa por *Mycobacterium avium*. *Arch Bronconeumol*. 1996;32:486-8.
- De Frutos Arribas JF, Del Río Fernández MC, Blanco Cabero M. Aspergiloma pulmonar y broncolitiasis. *Arch Bronconeumol*. 1998;34:169.
- Sen RP, Walsh TE. Fiberoptic bronchoscopy for refractory cough. *Chest*. 1991;99:33-5.
- Olson EJ, Utz JP, Prakash UBS. Therapeutic bronchoscopy in broncholithiasis. *Am J Respir Crit Care Med*. 1999;160:766-70.
- Samson IM, Rossoff LJ. Chronic lithoptysis with multiple bilateral broncholiths. *Chest*. 1997;112:563-5.
- Groves LK, Effler DB. Broncholithiasis. A review of twenty-seven cases. *Am Rev Tuberc*. 1956;73:19-30.
- Low SY, Eng P. All that wheezes is not asthma. Broncholithiasis, a forgotten disease. *Ann Acad Med Singapore*. 2002;31:528-30.
- Studer SM, Hetmiller RF, Terry PB. Mediastinal abscess due to passage of a broncholith. *Chest*. 2002;121:296-7.
- Snyder RW, Unger M, Sawicki RW. Bilateral partial bronchial obstruction due to broncholithiasis treated with laser therapy. *Chest*. 1998;113:240-2.
- Cole FH, Cole FH Jr, Khandekar A, Watson DC. Management of broncholithiasis: is thoracotomy necessary? *Ann Thorac Surg*. 1986;42:255-7.
- Shin MS, Ho KJ. Broncholithiasis: its detection by computed tomography in patients with recurrent hemoptysis of unknown origin. *J Comput Tomogr*. 1983;7:189-93.
- Conces DJ, Tarver RD, Vix VA. Broncholithiasis: CT features in 15 patients. *AJR Am J Roentgenol*. 1991;157:249-53.
- Grases F, Costa-Bauzá A, García-Ferragut L. Biopathological crystallization: a general view about the mechanism of renal stone formation. *Adv Colloid Interface Sci*. 1998;74:169-94.
- Grases F, Santiago C, Simonet BM, Costa-Bauzá A. Sialolithiasis: mechanism of calculi formation and etiologic factors. *Clin Chim Acta*. 2003;334:131-6.