



Malformación adenomatoidea quística pulmonar de afectación bilateral en el adulto

Sr. Director: La malformación adenomatoidea quística (MAQ) pulmonar es una alteración embriológica que se caracteriza por la proliferación de estructuras similares a los bronquiolos que acaban dando lugar a la formación de quistes de tamaños variables. El 85% de los pacientes se diagnostican antes de los 2 años de edad por distrés respiratorio en el período neonatal o infecciones de repetición¹. Su diagnóstico en el adulto y la afectación bilateral son extremadamente infrecuentes. Presentamos el caso de un varón de 21 años diagnosticado de MAQ pulmonar bilateral que requirió tratamiento quirúrgico.

Varón de 21 años, con antecedentes de quistes renales congénitos asintomáticos e infecciones respiratorias leves y recidivantes. En julio de 2003, a raíz de una infección respiratoria se observó una imagen quística en la base pulmonar derecha. Se realizó una tomografía computarizada (TC) de tórax, que fue indicativa de ampollas pulmonares bilaterales y que mostró un gran quiste en el lóbulo inferior derecho (LID). El resto de las exploraciones (hemograma, bioquímica sanguínea y pruebas funcionales respiratorias) fueron normales. Una vez valorado el caso, se orientó como una MAQ, dada la presencia de quistes pulmonares, quistes renales y la clínica en forma de infecciones respiratorias recidivantes. Al presentar el paciente sólo clínica de infecciones leves y tener afectación bilateral se decidió control ambulatorio. En diciembre de 2005 presentó una hemoptisis franca que precisó ingreso. La fibrobroncoscopia fue normal, sin restos hemáticos ni lesiones endobronquiales, pero en la TC torácica se constató la aparición de un nivel en el quiste del LID, así como cambios en su pared, lo que llevó a considerar que era el probable origen de la hemorragia. Tras valorar el caso se decidió la exéresis de dicho quiste. Se llevó a cabo una toracotomía posterolateral derecha. Se constató la gran lesión quística del LID visible en la TAC. No se identificó una irrigación arterial anómala de la lesión. Se realizó lobectomía inferior derecha sin incidencias. En el examen anatómopatológico se constató que la masa estaba compuesta por un gran quiste (3 × 5 cm)

que ocupaba el 20% del lóbulo resecado (fig. 1). El diagnóstico patológico final fue de MAQ pulmonar tipo I de Stocker.

Hasta el momento el paciente no ha vuelto a presentar clínica de hemoptisis ni infecciones de repetición y lleva una vida normal, similar a la de antes de la intervención.

La presentación de la MAQ en el adulto es extremadamente infrecuente y cuando aparece suele ser un hallazgo radiológico. Los pocos casos que asocian clínica suelen cursar con infecciones recidivantes, hemoptisis y neumotórax espontáneos de repetición². Se ha descrito su malignización³. El método diagnóstico de elección es la TC de alta resolución, que permite una excelente visualización de los quistes, su distribución, tamaño, localización y grosor de pared, de modo que orienta el diagnóstico de un modo más claro⁴. El patrón es variable, desde múltiples quistes hasta un quiste dominante en un entorno multiquístico o incluso una masa sólida y homogénea². La historia natural de la MAQ asintomática es desconocida y no existe consenso respecto a su tratamiento. El tratamiento de la MAQ sintomática, tanto en adultos como en niños, es el quirúrgico. La lobectomía es la resección de elección, si bien puede ser preciso llevar a cabo una resección más extensa cuando la lesión afecta a más de un lóbulo⁵. Como señalan Congregado et al⁶, el abordaje inicial puede ser por videotoroscopia, pues de este modo es posible obtener una exéresis completa de las lesiones evitando los inconvenientes de la toracotomía. En nuestro caso no empleamos la videotoroscopia de entrada, sino una toracotomía posterolateral directa para valorar mediante palpación e inspección minuciosa la cantidad de parénquima que había que resecar.

En conclusión, el diagnóstico de la MAQ se basa en la TC de alta resolución y su tratamiento de elección en los casos sintomáticos es la cirugía (por videotoroscopia o toracotomía), dado el riesgo de infecciones recidivantes y especialmente por el riesgo potencial de malignización.

Juan José Fibla Alfara,
Laureano Molins López-Rodó
y José Manuel Mier Odriozola

Servicio de Cirugía Torácica. Hospital Universitari Sagrat Cor. Barcelona. España.

1. Luján M, Bosque M, Mirapeix RM, Marco MT, Asensio O, Domingo C. Late-onset congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Embryology, clinical symptomatology, diagnostic procedures, therapeutic approach and clinical follow-up. *Respiration*. 2002;69:148-54.
2. Oh BJ, Lee JS, Kim JS, Lim CM, Koh Y. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung in adults: clinical and CT evaluation of seven patients. *Respirology*. 2006;11:496-501.
3. Ioachimescu OC, Mehta AC. From cystic pulmonary airway malformation, to bronchioloalveolar carcinoma and adenocarcinoma of the lung. *Eur Respir J*. 2005;26:1181-7.
4. Echeveste J, Fernández-Velilla M, Torres MI, Pardo M, Berrocal T, Martín-Hervás C. Enfermedades quísticas del pulmón: hallazgos en la tomografía computarizada de alta resolución. *Arch Bronconeumol*. 2005;41:42-9.
5. Ribet ME, Copin MC, Soots JG, Gosselin BH. Bronchioloalveolar carcinoma and congenital cystic adenomatoid malformation. *Ann Thorac Surg*. 1995;60:1126-8.
6. Congregado M, Loscertales J, Girón-Arjona JC, Jiménez-Merchán R, Arroyo-Tristán A, González Cámpora R. Tres casos de malformación adenomatoidea quística en el adulto tratados por cirugía videotoroscópica. *Arch Bronconeumol*. 2004;40:236-9.



Neumonitis por hipersensibilidad por *Mycobacterium chelonae*

Sr. Director: *Mycobacterium chelonae* es una micobacteria no tuberculosa (MNT) que se incluye en el grupo de micobacterias de crecimiento rápido^{1,2}. Las micobacterias del grupo *M. chelonae-abscessus* son microorganismos ubicuos que ocasionan infección por vía inhalada. La enfermedad pulmonar producida por *M. chelonae* es muy poco frecuente: en una amplia serie de pacientes con lesión pulmonar por micobacterias de crecimiento rápido, los casos relacionados con la infección por este microorganismo fueron excepcionales³. Concretamente, no se ha comunicado ningún caso de neumonitis por hipersensibilidad en la infección por *M. chelonae*, aunque sí se ha descrito en la infección por *M. immunogenum*⁴.

Mujer de 53 años, sin antecedentes patológicos de interés, que consultó por un cuadro clínico de disnea progresiva, tos seca y fiebre de 9 meses de evolución, cuadro que no se asociaba con astenia, anorexia ni pérdida de peso. En la anamnesis por aparatos no se apreciaron otras manifestaciones clínicas asociadas. La paciente trabajaba de conserje, sin contacto aparente con productos tóxicos. Entre los antecedentes epidemiológicos destacaba la presencia de un loro en su domicilio y una historia de 3 viajes al extranjero (Cuba, Sáhara y México 6 meses antes), si bien en ninguno había tenido contacto con animales exóticos.

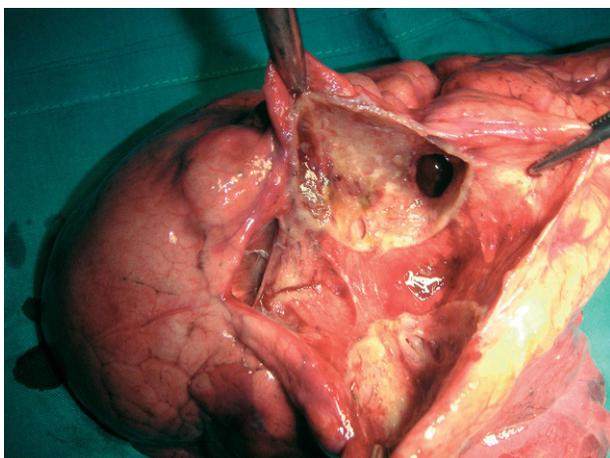


Fig. 1. Pieza de lobectomía inferior derecha con la malformación adenomatoidea quística en su interior.

En la exploración física la paciente estaba afebril y la presión arterial, la frecuencia cardíaca y la frecuencia respiratoria eran normales. La exploración torácica demostraba crepitaciones en las bases; el resto era normal. El hemograma era normal, la velocidad de sedimentación globular era de 38 mm y los estudios de hemostasia eran normales, al igual que el perfil bioquímico (que incluía pruebas hepáticas), el sistemático y sedimento de orina. Se realizó un estudio inmunológico básico (factor reumatoide, anticuerpos antinucleares y anticuerpos citoplásmicos antineutrófilos), que resultó negativo. La radiografía simple de tórax no mostraba alteraciones aparentes, y la gasometría basal evidenciaba hipoxemia e hipocapnia leves (presión arterial de oxígeno: 74,1 mmHg; presión arterial de anhídrido carbónico: 33 mmHg). Los hemocultivos, realizados de forma seriada, fueron repetidamente negativos, así como el coprocultivo y el urinocultivo. En los cultivos de esputo se identificó repetidamente *M. chelonae* (6 muestras obtenidas en días diferentes). El antimicrobiograma demostró que el microorganismo aislado era sensible a claritromicina, imipenem, amicacina y linezólido. Los estudios serológicos habituales y el de precipitinas frente a excrementos (E77) y plumas (E78) de periquitos fueron negativos. La tomografía computarizada de tórax demostró un aumento de tamaño de los ganglios mediastínicos (< 1 cm), así como un patrón intersticial parcheado y bilateral, de predominio en la región basal izquierda. El estudio funcional respiratorio mostró una disminución leve de la capacidad vital forzada (un 74% del valor predicho) en la espirometría dinámica, una disminución del volumen corriente (un 77% del predicho) en la pletismografía y una moderada disminución de la capacidad de difusión de monóxido de carbono (en respiración única). No se observaron anomalías macroscópicas en la fibrobroncoscopia, y se realizaron broncoaspirado, lavado broncoalveolar y biopsia transbronquial. Los resultados del cultivo del broncoaspirado fueron positivos para *M. chelonae*. El estudio citológico del lavado broncoalveolar demostró un 49% de linfocitos, un 49% de macrófagos, un 3% de neutrófilos, un 2% de eosinófilos y un 2% de mastocitos. El estudio fenotípico de los linfocitos demostró un cociente CD4/CD8 de 0,33. En la biopsia transbronquial se observó un aumento de células mononucleares en el intersticio pulmonar, así como un pequeño granuloma no necrosante con células gigantes.

La paciente recibió tratamiento con claritromicina y linezólido durante 6 meses. La evolución fue favorable y los cultivos resultaron negativos. En la actualidad se encuentra asintomática y se han normalizado las alteraciones en las pruebas complementarias.

El diagnóstico sindrómico de neumonitis por hipersensibilidad se basa en la asociación de datos clínicos y radiológicos, el estudio funcional respiratorio, los datos del lavado broncoalveolar y las lesiones histopatológicas⁵. En el caso clínico comunicado, la paciente presentaba todos los criterios característicos de la neumonitis por hipersensibilidad. El diagnóstico sindrómico de esta enfermedad debe completarse con estudios dirigidos a la identificación del agente causal. Dentro de los agentes causales, algunas MNT, concretamente *M. avium*, *M. terrae* y *M. immunogenium*, se han descrito en casos aislados o brotes de neumonitis por hipersensibilidad. Sin embargo, tras una búsqueda bibliográfica exhaustiva no hemos encontrado casos de esta entidad relacionados con *M. chelonae*. El caso descrito cumple, además de los criterios de neumonitis por hipersensibilidad mencionados previamente, los criterios de la American Thoracic Society de infección por una MNT⁶. A pesar de una exhaustiva anamnesis, no fue posible localizar la fuente, aunque la relación temporal entre el inicio de las manifestaciones clínicas y el viaje a México apunta a una infección importada. Los datos de los estudios de imagen que se realizaron eran indicativos de neumonitis por hipersensibilidad y poco habituales en la enfermedad producida directamente por MNT (p. ej., nódulos, bronquiectasias, cavitación).

La evolución de las neumonitis por hipersensibilidad depende fundamentalmente de la retirada del estímulo antigénico y, si no se identifica, del empleo de corticoides. En el caso descrito el tratamiento de la micobacteriosis se asoció con la resolución clínica. Esta evolución indica la ausencia de una exposición permanente, a diferencia de otros casos de neumonitis por hipersensibilidad relacionada con MNT⁴. Por otro lado, el curso clínico de la paciente, que no recibió corticoides, permite pensar que en las neumonitis por hipersensibilidad relacionadas con micobacterias, en ausencia de datos de gravedad, el tratamiento etiológico puede ser curativo.

Los autores agradecen la colaboración de Candelaria Santana (Neumología), Fernando

Cañas (Microbiología) y M. Carmen Camacho (Anatomía Patológica), del Hospital Universitario Insular de Gran Canaria, que no han podido ser incluidos en este trabajo por razones editoriales.

**Moncef Belhassen-García^a,
Michele Hernández-Cabrera^{b,c}
y José-Luis Pérez-Arellano^{b,c}**

^aServicio de Medicina Interna III. Hospital Clínico Universitario. Salamanca. España.

^bUnidad de Enfermedades Infecciosas y Medicina Tropical. Servicio de Medicina Interna. Hospital Universitario Insular de Gran Canaria. Las Palmas de Gran Canaria. Las Palmas. España.

^cDepartamento de Ciencias Médicas y Quirúrgicas. Universidad de Las Palmas de Gran Canaria. Las Palmas de Gran Canaria. Las Palmas. España.

1. Brown-Elliot BA, Wallance RJ. Clinical and taxonomic status of pathogenic non-pigmented or late-pigmenting rapidly growing mycobacteria. Clin Microbiol Rev. 2002;15:716-46.
2. Katoch VM. Infections due to non-tuberculous mycobacteria (NTM). Indian J Med Res. 2004;120:290-304.
3. Griffith DE, Girard WM, Wallace RJ Jr. Clinical features of pulmonary disease caused by rapidly growing mycobacteria: an analysis of 154 patients. Am Rev Respir Dis. 1993;147:1271-8.
4. Beckett W, Kallay M, Sood A, Zuo Z, Milton D. Hypersensitivity pneumonitis associated with environmental mycobacteria. Environ Health Perspec. 2005;113:767-70.
5. Pérez Arellano JL, Sánchez R, Pastor I, Losa JE, García MJ, González Villarón L. Pathogenesis of hypersensitivity pneumonitis. Allergol Immunopathol. 1989;17:225-32.
6. Wallace RJ Jr, Cook JL, Glassroth J, Griffith DE, Olivier KN, Gordin G. American Thoracic Society Statement: diagnosis and treatment of disease caused by nontuberculous mycobacteria. Am Respir Crit Care Med. 1997;156:S1-S25.