



Nota clínica

Resolución espontánea de un seudotumor inflamatorio del pulmón como consecuencia de una biopsia en cuña

Vikas Maurya^a, Uday Aditya Gupta^a, Ravindra K. Dewan^b, Sudhir Jain^c y Ashok Shah^{a,*}^a Department of Respiratory Medicine, Vallabhbai Patel Chest Institute, University of Delhi, Nueva Delhi, India^b Department of Thoracic Surgery, Lala Ram Sarup Institute of Tuberculosis and Respiratory Diseases, Nueva Delhi, India^c OncQuest Laboratories New Delhi, Nueva Delhi, India

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 1 de abril de 2012

Aceptado el 10 de abril de 2012

On-line el 23 de octubre de 2012

Palabras clave:

Seudotumor inflamatorio

Pulmones

Resolución espontánea

Biopsia en cuña

RESUMEN

La resolución completa y espontánea de un seudotumor inflamatorio (STI) de los pulmones es excepcional. Un hombre de 44 años de edad fue derivado para la valoración de una «neumonía no resuelta». Refería tos y expectoración mínima durante 5 meses, al igual que dolor torácico, hemoptisis y fiebre durante 2 semanas. La tomografía computarizada (TC) de tórax confirmó la presencia de una masa homogénea de bordes irregulares localizada en el lóbulo medio derecho con áreas de dispersión y broncograma aéreo. La biopsia pulmonar transbronquial era sugestiva de un «granuloma de células plasmáticas». En la toracotomía se puso de relieve una masa dura localizada en el lóbulo medio derecho y adherida al lóbulo inferior, la pared torácica y el mediastino, cuya resección no fue posible. Una biopsia en cuña confirmó un STI. La radiografía de tórax, efectuada 4 semanas después, reveló una resolución sustancial. En la TC de tórax, realizada un año más tarde, se demostró una escara fibrótica. Hasta la fecha solo se han publicado 6 casos de pacientes con una resolución espontánea de PTI de los pulmones, y en 4 se describió al cabo de 3 meses de una intervención diagnóstica cruenta.

© 2012 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Spontaneous Resolution of an Inflammatory Pseudotumour of the Lung Subsequent to Wedge Biopsy

ABSTRACT

Spontaneous, complete resolution of inflammatory pseudotumour (IPT) of lungs is exceptionally rare. A 44-year-old male was referred for evaluation for «non resolving pneumonitis». He had cough and minimal expectoration for 5 months, chest pain, haemoptysis and fever for a fortnight. Computed tomography of thorax (CT-thorax) confirmed the presence of a homogenous mass with irregular borders in right middle lobe with areas of breakdown and air bronchogram. Transbronchial lung biopsy was suggestive of «plasma cell granuloma». Thoracotomy disclosed a hard mass in right middle lobe adherent to lower lobe, chest wall and mediastinum which could not be removed. A wedge biopsy confirmed IPT. Chest radiograph after 4 weeks revealed significant resolution. CT-thorax a year later showed fibrotic scar. Till date, there are only five reports documenting 6 patients with spontaneous resolution of IPT of lungs and in 4 this occurred within 3 months of an invasive diagnostic intervention.

© 2012 SEPAR. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Keywords:

Inflammatory pseudotumour

Lungs

Spontaneous resolution

Wedge biopsy

Introducción

El seudotumor inflamatorio (STI) pulmonar es una entidad poco frecuente que, en general, no ocupa lugar en la lista de diagnóstico diferencial de las masas pulmonares solitarias. Aunque parece comportarse como una neoplasia, ya que la lesión puede ser extensa,

multifocal o recurrente, se considera que es un proceso reactivo con un pronóstico excelente^{1,2}. En 1939, Brunn³ describió por primera vez esta entidad clínica, y desde entonces las descripciones esporádicas de casos clínicos en los estudios publicados^{1,2,4,5} han caracterizado la enfermedad.

En 1981, Mandelbaum documentó por primera vez⁵ la resolución espontánea de un STI, un fenómeno excepcional⁵. Aunque en algunas publicaciones en la India también se ha descrito la existencia de esta entidad⁶, todavía no se ha documentado la resolución espontánea. Presentamos a un hombre de 44 años de edad con el

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ashokshah99@yahoo.com (A. Shah).

proceso, que experimentó una resolución espontánea después de una biopsia pulmonar abierta. La rareza de dicha descripción en los estudios publicados propició que nos decidiéramos a publicar el presente caso.

Caso clínico

Un hombre de 44 años de edad, con resultados negativos de la serología para el virus de la inmunodeficiencia humana, fue derivado a nuestro instituto para la evaluación de una «neumonitis no resuelta». Durante los 5 últimos meses había experimentado tos con expectoración mínima, siendo en ocasiones el esputo amarillento. En las 2 semanas previas a su derivación experimentó fiebre, hemoptisis y dolor en el hemitórax inferior derecho. La fiebre se asociaba a anorexia y pérdida de peso. El paciente era fumador de 30 paquetes/año, pero al inicio de la enfermedad había dejado de fumar. Había recibido, sin observar ningún alivio, varias pautas de fármacos por vía oral, cuya naturaleza exacta se desconocía. La exploración física reveló a un hombre de mediana edad, de complexión delgada, sin aparente mal estado. Se observó palidez e hipocratismo digital. Se detectó matidez a la percusión en la región inframamaria e infraescapular derecha. La excursión diafragmática estaba disminuida en el lado derecho. El murmullo vesicular estaba disminuido en las mismas áreas pero sin ruidos patológicos.

En la radiografía de tórax se reveló una opacidad homogénea bien definida en la zona media e inferior derechas, adyacente al corazón. El hemograma demostró leucocitosis (13.400 células/ mm^3) con neutrofilia predominante, al igual que una anemia hipocrómica microcítica. Las pruebas de función hepática y renal eran normales. Las tinciones y cultivo de esputo para *Mycobacterium tuberculosis* y otros microorganismos aeróbicos fueron negativos. En la tomografía computarizada (TC) del tórax se demostró una masa de tejido blando homogénea, solitaria, de bordes irregulares, localizada en el lóbulo medio derecho y múltiples colecciones de aire y un broncograma aéreo indicativo de consolidación (fig. 1A). La citología tras aspiración con aguja fina, guiada con TC, no fue concluyente. La broncoscopia de fibra óptica demostró una carina bien delimitada, sin lesiones endobronquiales. El líquido de lavado broncoalveolar fue negativo para *M. tuberculosis* y otros microorganismos aeróbicos. El examen histopatológico de la muestra de la biopsia transbronquial puso de relieve tejido de granulación inflamatorio crónico, rico en células plasmáticas y que contenía escasos neutrófilos. Se sospechó un diagnóstico de granuloma de células plasmáticas (fig. 2A). Después de la broncoscopia, el paciente experimentó un aumento de la fiebre con esputo purulento y dolor torácico. Este cuadro se asoció a leucocitosis (19.100 células/ mm^3) con predominio de neutrófilos, siendo las tinciones y cultivos de esputo negativos para bacterias aeróbicas. La

radiografía de tórax reveló un aumento de tamaño de la opacidad con áreas de degradación. El paciente respondió a los antibióticos administrados. Al cabo de 6 semanas de la broncoscopia, el paciente se sometió a una toracotomía posterolateral derecha, que reveló una masa dura en el lóbulo medio derecho que se adhería al lóbulo inferior, pared torácica y mediastino. Debido a la naturaleza adherente de la masa, se obtuvo una biopsia en cuña de la lesión, que demostró una acumulación de células inflamatorias con predominio de células linfoplasmocíticas. No había actividad mitótica (fig. 2B). Las características generales confirmaron el diagnóstico de pseudotumor inflamatorio (STI). Después de la toracotomía, el paciente manifestó una mejoría sintomática y radiológica marcada al cabo de 3 semanas. Un año más tarde, la radiografía reveló la resolución de la lesión, y la TC de tórax mostraba una banda fibrótica residual, fina, localizada en el lóbulo medio derecho (fig. 1B).

Discusión

El STI pulmonar es una lesión localmente agresiva, poco frecuente, con una composición inflamatoria y un pronóstico favorable^{1,2,7-10}. Esta entidad se conoce también con otros términos, como «tumor miofibroblástico inflamatorio», «histiocitoma», «granuloma de células plasmáticas» y «xantofibroma»^{1,2,7,10}. Umiker e Iverson⁴ acuñaron el término «seudotumor postinflamatorio», que quizás es el que mejor describe esta entidad. La revisión de los registros de casos institucionales estimó que la prevalencia de STI pulmonar es del 0,7% en tumores de pulmón y bronquios¹¹ y del 0,04% en procedimientos de cirugía torácica general⁹. Aparte del pulmón, el STI se ha documentado en otras localizaciones corporales¹⁰.

El STI pulmonar se caracteriza por presentaciones clínicas variables que fluctúan desde un hallazgo incidental, asintomático en una radiografía de tórax sistemática hasta una presentación agresiva, similar a la de una neoplasia^{1,2,7-10}. Las características clínicas habituales incluyen tos, dolor torácico, disnea, hemoptisis, fiebre, malestar y pérdida de peso^{1,2}. En niños¹² y en adultos^{1,2} se han descrito hipocratismo digital y osteoartropatía hipertrófica. Se ha documentado que ambos procesos se resuelven tras la exéresis quirúrgica del STI^{1,12}. Aunque el paciente descrito era portador de hipocratismo digital, este no se invirtió tras la resolución de la lesión.

Desde un punto de vista radiológico, el STI se caracteriza por una presentación variable. En general se presenta como un nódulo solitario o una masa lobulada bien definida^{1,8,10}, con predilección por el lóbulo inferior^{8,10}. En la TC de tórax su aspecto es inespecífico, y con frecuencia se asocia a un patrón de atenuación heterogénea y se realza con el contraste^{1,2,8,10}. En ocasiones puede presentarse con consolidación, atelectasia, bronquiectasia, cavitaciones o linfadenopatía asociada^{1,2,8,10}.

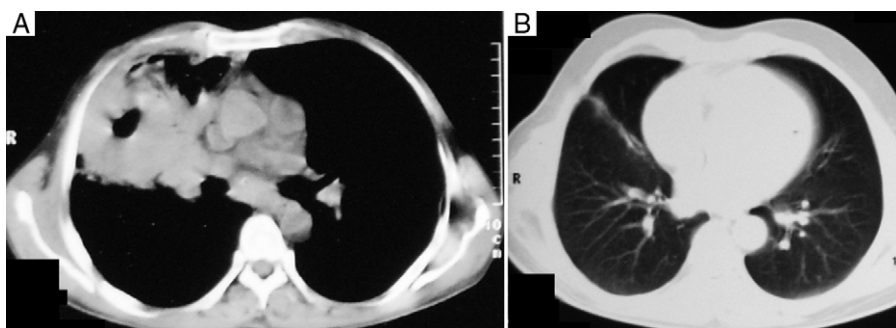


Figura 1. A) La tomografía computarizada (TC) de la ventana mediastínica demuestra una masa de densidad de tejido blando, localizada en el lóbulo medio derecho con cavitación y con consolidación circundante. B) La TC de la ventana pulmonar al cabo de un año de la biopsia en cuña muestra una opacidad fibrótica lineal en el lóbulo medio derecho.

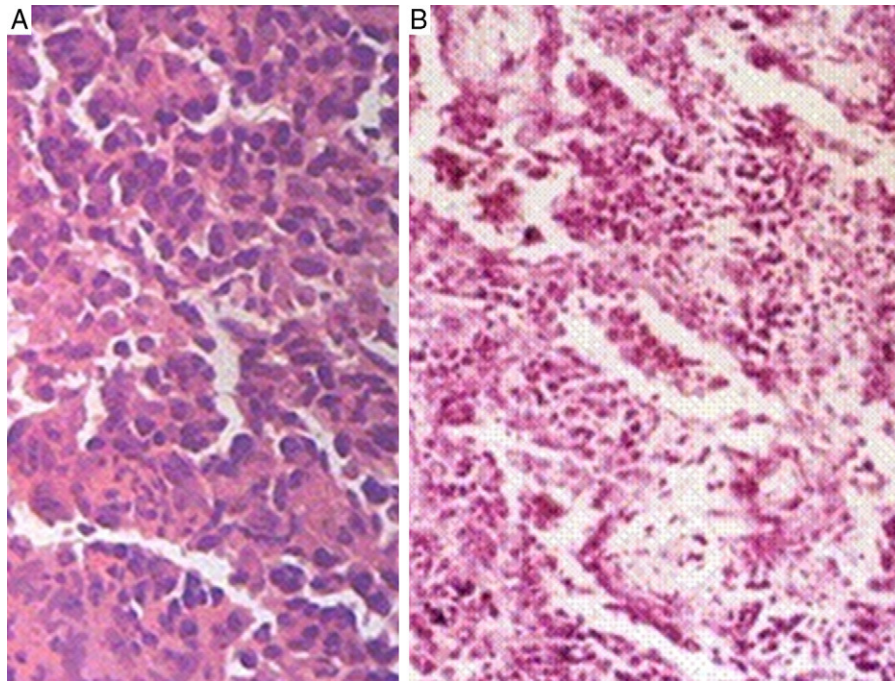


Figura 2. A) La biopsia transbronquial muestra capas de células plasmáticas. B) La biopsia pulmonar abierta muestra células plasmáticas y linfocitos (tinción con hematoxilina y eosina).

Más rara vez, se observan características de agresividad local. El STI puede diseminarse a la arteria pulmonar, la aurícula izquierda, la pleura y el mediastino, lo que requiere procedimientos mayores, como una resección en la pared torácica, neumonectomía o radioterapia posquirugía^{8,9}. También se ha descrito su recidiva, que se trata de forma similar^{1,2}. En una serie publicada, la supervivencia global a 5 años fue del 91% tras resección⁹.

La resolución espontánea de esta entidad es un fenómeno poco frecuente. Una búsqueda de los estudios publicados en la base de

datos Medline/PubMed y otras con las palabras clave «pulmón», «seudotumor inflamatorio» y «resolución espontánea» produjo artículos desde 1956 a 2011. Por lo tanto, se localizaron las bibliografías de estos artículos en busca de artículos pertinentes adicionales. La búsqueda deparó 5 artículos^{5,13-16} que documentaban a 6 pacientes con una resolución espontánea y completa de un STI pulmonar (tabla 1). Además, se ha publicado el caso de un paciente en el que no se documentó una resolución completa⁵. En otro caso publicado, se demostró la detención del crecimiento del STI sin una

Tabla 1

Resumen de la información disponible de 7 pacientes (incluido el descrito en el presente artículo) con resolución espontánea del seudotumor inflamatorio

Edad, sexo y referencia bibliográfica	Síntomas	Presentación radiológica	Modalidad diagnóstica	Tiempo transcurrido hasta la resolución ^a	Seguimiento	Comentarios
38, mujer ⁵	Tos, dolor torácico	Masa en el lóbulo superior derecho	Biopsia toracotomía abierta	ND	5 años	Adenoma folicular benigno concomitante de tiroides
57, hombre ⁵	Tos, disnea	Masa hilar derecha, calcificación excéntrica	Biopsia toracotomía abierta	ND	10 años	Resolución total a lo largo de años
9, hombre ¹³	Pérdida de peso	Masa en el lado derecho	ND	Resolución significativa a las 6 semanas	7 meses	Masa de 4,5 cm
65, hombre ¹⁴	Tos, disnea, y hemoptisis	Densidades nodulares mal definidas, bilaterales en la TC	Biopsia con aguja	3 meses ^b	7 años ^b	Artículo en francés ^c
62, hombre ¹⁵	Asintomático	Nódulos múltiples bilaterales	Cirugía torácica asistida con vídeo	Resolución al cabo de un mes	ND	Células plasmáticas positivas para IgG4 ^c ; artículo en japonés
72, hombre ¹⁶	Tos, fiebre, y pérdida de peso	Tumor en el campo pulmonar inferior izquierdo	Biopsia pulmonar transbronquial	A las 4 semanas presencia de tan solo escaras	ND	Artículo en japonés ^c
44, hombre ^d	Tos, esputo, dolor torácico, hemoptisis, fiebre y pérdida de peso	Masa en el lóbulo medio derecho con consolidación	Biopsia en cuña	Resolución significativa al cabo de 4 semanas. La TC de tórax al cabo de un año demostró una escara residual	1 año	Firme sospecha en la biopsia pulmonar transbronquial

ND: información no disponible.

^a Tiempo desde el diagnóstico hasta cualquier documentación efectuada de la resolución de la lesión.

^b Comunicación personal.

^c Solo disponible en forma de resumen.

^d Caso clínico descrito en el presente informe.

intervención y permaneció estable durante 2 años¹⁷. En otro paciente, el STI se resolvió por completo mediante el tratamiento con corticoesteroides.

En la **tabla 1** se resumen las 5 publicaciones que documentan a 6 pacientes con una resolución espontánea. De los 6 pacientes, 5 eran hombres^{5,13-16}. Hubo 5 adultos^{5,14-16}, 3 de los cuales¹⁴⁻¹⁶ tenían >60 años de edad, y un niño¹³. La tos estuvo presente en 4 de 5 pacientes^{5,14,16}, mientras que uno¹⁵ permaneció asintomático. Desde un punto de vista radiológico, 4 pacientes^{5,13,16} presentaron una masa solitaria, una de las cuales⁵ también se asociaba a una calcificación excéntrica, mientras que 2^{14,15} presentaron nódulos bilaterales. El diagnóstico se estableció mediante toracotomía⁵/cirugía toracoscópica asistida con vídeo¹⁵ en 3 pacientes, mientras que fue instrumental en un paciente, en el que se estableció mediante biopsia con aguja¹⁴, y en otro, mediante biopsia pulmonar transbronquial¹⁶. Después de la intervención diagnóstica, en 3 de los 6 pacientes^{13,15,16} en los que se dispuso de información, al cabo de un período de 4 semanas a 3 meses se observó la resolución de los síntomas junto con una resolución radiológica sustancial. El curso del seguimiento durante 7 meses a 10 años en 3 pacientes^{5,13} transcurrió sin incidentes. El paciente descrito experimentó una mejoría asintomática espectacular en la tercera semana y la radiografía de tórax, efectuada a las 4 semanas, demostró una resolución notable de la lesión. La TC de seguimiento, efectuada después de un año, reveló una resolución completa.

Se desconocen las razones de la resolución espontánea de esta lesión. Sin embargo, en 4 de 7 pacientes, incluido el descrito en el presente informe, el STI se resolvió espontáneamente al cabo de semanas de un procedimiento diagnóstico cruento. El caso descrito destaca el hecho de que la resolución espontánea de esta entidad posiblemente puede estar desencadenada por el procedimiento diagnóstico cruento y, por consiguiente, es prudente observar al paciente en busca de este fenómeno antes de planificar la resección quirúrgica de la lesión.

Agradecimientos

Los autores desean expresar su agradecimiento al Dr. Antoine Chucrallah por remitir los detalles del caso clínico publicado en Francia¹⁴.

Bibliografía

1. Bahadori M, Liebow AA. Plasma cell granulomas of the lung. *Cancer*. 1973;31:191-208.
2. Berardi RS, Lee SS, Chen HP, Stines GJ. Inflammatory pseudotumors of the lung. *Surg Gynecol Obstet*. 1983;156:89-96.
3. Brunn H. Two interesting benign tumors of contradictory histopathology. Remarks on the necessity for maintaining the Chest Tumor Registry. *J Thorac Surg*. 1939;9:119-31.
4. Umiker WO, Iverson LC. Post inflammatory tumor of the lung: report of four cases simulating xanthoma, fibroma or plasma cell granuloma. *J Thorac Surg*. 1954;28:55-62.
5. Mandelbaum I, Brashear RE, Hull MT. Surgical treatment and course of pulmonary pseudotumor (plasma cell granuloma). *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1981;82:77-82.
6. Singh RS, Dhaliwal RS, Puri D, Behera D, Das A. Inflammatory pseudotumour of the lung: report of a case and review of literature. *Indian J Chest Dis Allied Sci*. 2001;43:231-4.
7. Matsubara O, Tan-Liu NS, Kenney RM, Mark EJ. Inflammatory pseudotumors of the lung: progression from organizing pneumonia to fibrous histiocytoma or to plasma cell granuloma in 32 cases. *Hum Pathol*. 1988;19:807-14.
8. Agrons GA, Rosado-de-Christenson ML, Kirejczyk WM, Conran RM, Stocker JT. Pulmonary inflammatory pseudotumor: radiologic features. *Radiology*. 1998;206:511-8.
9. Cerfolio RJ, Allen MS, Nascimento AG, Deschamps C, Trastek VF, Miller DL, et al. Inflammatory pseudotumors of the lung. *Ann Thorac Surg*. 1999;67:6-6.
10. Narla LD, Newman B, Spottswood SS, Narla S, Kolli R. Inflammatory pseudotumor. *Radiographics*. 2003;23:719-29.
11. Golbert SV, Pletnev SD. On pulmonary pseudotumours. *Neoplasma*. 1967;18:9-198.
12. Pichler G, Eber E, Thalhammer G, Muntean W, Zach MS. Arthralgia and digital clubbing in a child: hypertrophic osteoarthropathy with inflammatory pseudotumour of the lung. *Scand J Rheumatol*. 2004;33:189-91.
13. Brown KC, McCarthy VP, Gaines T. Spontaneous resolution of a plasma cell granuloma in a 9-year-old. *J Assoc Acad Minor Phys*. 1998;9:31-4.
14. Checrallah A, Riachi M, Slaba S. Inflammatory pseudotumors of the lung with spontaneous regression. *J Med Liban*. 2005;53:229-33 [Artículo en francés].
15. Tanabe N, Kato M, Yonemoto C, Koshimo Y, Goto S, Kawashima M. A case of IgG4-related inflammatory pseudotumor of the lung. *Nihon Kogyuki Gakkai Zasshi*. 2008;46:894-8 [Artículo en japonés].
16. Sakashita K, Takamori M, Murata K, Wada A, Fujita A, Enatsu K. A case of IgG4-positive inflammatory pseudotumor which rapidly resolved. *Nihon Kogyuki Gakkai Zasshi*. 2011;49:172-7 [Artículo en japonés].
17. Bush A, Sheppard MN, Wahn U, Warner JO. Spontaneous arrest of growth of a plasma cell granuloma. *Respir Med*. 1992;86:161-4.