

# Seudotumor inflamatorio endobronquial. Presentación de un caso y revisión de la literatura

J.F. Oteo Domínguez, M. Yebra Bango, A. Varela de Ugarte\*, E. Berrocal Valencia, M. Pérez Ramos\*\* y S. Ramón y Cajal\*\*

Servicio de Medicina Interna I. \* Servicio de Cirugía Cardiovascular. \*\* Servicio de Anatomía Patológica. Clínica Puerta de Hierro. Madrid.

Elseudotumor inflamatorio endobronquial es una variante poco descrita deseudotumor inflamatorio pulmonar, cuyo crecimiento se dirige a la luz bronquial. Se presenta un caso y revisamos otros 17 bien documentados en la literatura médica.

Se observa la frecuente asociación de dicha variante con clínica respiratoria obstructiva y atelectasias como patrón radiológico, lo que permite su detección en edades tempranas de la vida.

La biopsia endomiocárdica no suele confirmar el diagnóstico por lo que se requiere el estudio tras resección de la pieza quirúrgica. Se comprueba la ausencia de recidivas tras la lobectomía.

*Arch Bronconeumol 1994; 30:52-55.*

## Introducción

Elseudotumor inflamatorio (PI) hace referencia a un grupo de lesiones benignas, que morfológicamente simulan verdaderos tumores, cuya localización principal es la pulmonar.

Se presenta un caso deseudotumor inflamatorio de localización endobronquial (PIE), variedad clínica rara y poco descrita en la literatura. Así mismo, se revisarán los casos de localización endobronquial publicados y sus aspectos clínicos más sobresalientes.

## Caso clínico

Varón de 22 años de edad, no fumador, con antecedentes de bronquitis de repetición durante la primera década de su vida, que refería síntomas de un mes de evolución consistentes en tos con expectoración mucoide e hilos de sangre, febrícula y dolor parasternal de características pleuríticas, persistiendo dicha sintomatología a pesar del tratamiento con eritromicina.

En la exploración física se objetivaron crepitantes y roncus en base derecha, sin otros datos de interés.

La analítica elemental de sangre y orina fue normal. La inoculación con PPD y la serología a *Mycoplasma*, *Influenza*, *psittacosis*, *Coxiella*, *Legionella* y adenovirus fueron negativas.

Correspondencia: Dr. M. Yebra.  
Servicio de Medicina Interna I. Clínica Puerta de Hierro.  
28035 Madrid.

Recibido el 4-2-1993; aceptado para su publicación el 10-6-1993.

## Endobronchial inflammatory pseudotumor. A case report and review of the literature

The endobronchial inflammatory pseudotumor is a little described variant of inflammatory lung pseudotumor, the growth of which is directed towards bronchial lumen. A case is presented and seventeen other well documented cases from the medical literature are reviewed.

This variant has been frequently observed with clinical manifestations of obstructive respiration and atelectasia as a radiologic pattern allowing detection at an early age. Endoscopy does not usually confirm diagnosis; surgery and study of the specimen removed is therefore necessary.

El estudio radiológico de tórax mostró un infiltrado basal derecho, con signos de pérdida de volumen. La TC (fig. 1) reveló un aumento del hilio derecho con engrosamiento e irregularidad de la pirámide bronquial derecha y ausencia de adenopatías mediastínicas.

El cultivo, Ziehl y Löwenstein de esputo fue negativo y la citología no mostró células tumorales.

El paciente fue sometido a una broncoscopia, visualizándose una tumoración endobronquial en el bronquio intermedio con extensión al bronquio del lóbulo inferior derecho.

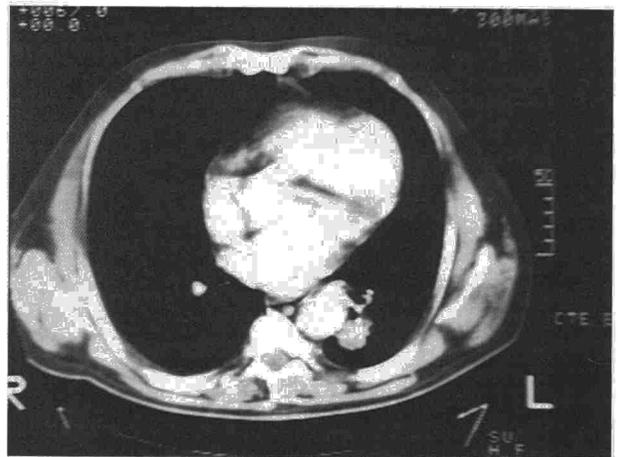


Fig. 1. Corte transversal de la TC torácica. Masa no homogénea adyacente al margen inferior del hilio derecho.



Fig. 2. Imagen macroscópica de la tumoración. Se aprecia una lesión de 2 cm de coloración blanquecina y localización predominantemente intra-bronquial, que infiltra focalmente el parénquima.

Se realizaron 2 biopsias que mostraron lesiones benignas de carácter inflamatorio con histiocitosis e intenso infiltrado inflamatorio crónico. El estudio microbiológico y citológico del BAL y aspirado bronquial no arrojaron resultados concluyentes.

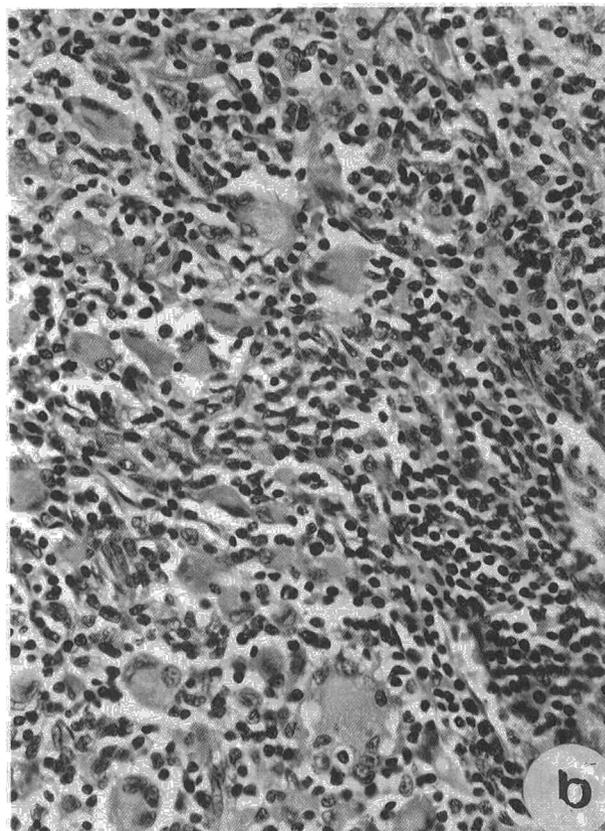
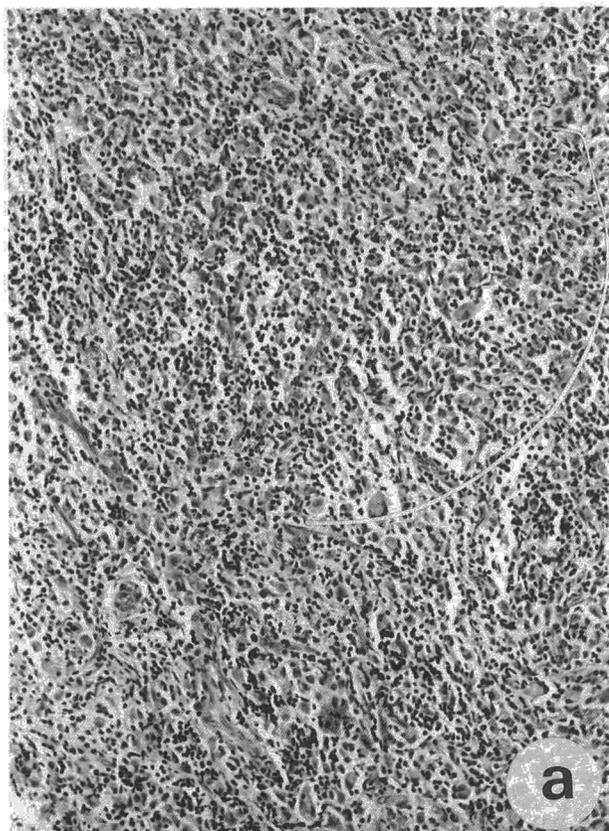
Se realizó lobectomía inferior derecha con broncoplastia mediante anastomosis terminoterminal del bronquio inter-

mediario al bronquio del lóbulo medio. El estudio anatómopatológico macroscópico (fig. 2) evidenció una lesión endobronquial polipoide que afectaba el parénquima pulmonar adyacente, de 3 cm, de márgenes bien definidos. En el resto de la pieza se observaron bronquiectasias y abundante material mucoso.

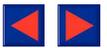
Microscópicamente (fig. 3a y b), la lesión estaba constituida por una proliferación linfoide e histiocitaria, difusa, bien delimitada del parénquima adyacente. Las células histiocitarias exhibían frecuentes linfocitosis. Se apreciaban células multinucleadas y abundantes células linfoides de pequeño tamaño y plasmáticas. En el estudio ultraestructural, las células histiocitarias exhibían frecuentes lisosomas y vacuolas lipofágicas. No se observaron gránulos de Birbeck en ningún caso.

En el estudio inmunohistoquímico se observó positividad con la proteína S100 en las células histiocitarias y una proliferación linfoide predominantemente T (marcadores UCHL-1, MT) CD4 positivas. El OKT 6 (marcadores de células de Langerhans) fue negativo. El índice proliferativo (anticuerpo Ki 67) fue inferior al 3%. Dadas las características morfológicas y fenotípicas de la lesión, el diagnóstico anatómopatológico fue pseudotumor inflamatorio endobronquial de pulmón.

En la evolución posquirúrgica cabe destacar la aparición de una fistula broncopleurales con desarrollo de empiema que remitió tras drenaje y tratamiento antibiótico; un año después, el paciente se encuentra asintomático y la radiografía de tórax muestra sólo secuelas quirúrgicas.



Figs. 3a y b. a) Imagen panorámica de la tumoración. Se observa una proliferación celular polimorfa con abundantes células linfoides, histiocitos y banda fibrosa. (Hematoxilina-eosina.) b) Detalle de la tumoración en que se aprecian células histiocitarias con linfocitos fagocitados y numerosas células inflamatorias. (Hematoxilina-eosina.)



## Discusión

El seudotumor inflamatorio representa el 0,7 % de las tumoraciones pulmonares<sup>1-3</sup>, aunque está descrita como la causa más frecuente de nódulo pulmonar solitario en pacientes menores de 16 años<sup>3,4</sup>.

La variante endobronquial es una entidad poco frecuente, cuyos datos clínicos no han sido analizados independientemente del resto de los seudotumores inflamatorios parenquimatosos (PIP).

Se revisan 17 casos de PIE (tablas I y II) y se comparan con los casos publicados de PIP. La localización fue específicamente endobronquial (15 casos) y endotraqueal (2 casos), con edades comprendidas desde 13 meses a 71 años (media 25 años), observándose la predilección de esta tumoración por edades tempranas de la vida (70 % en las 3 primera décadas); lo que contrasta con la edad media de los casos de PIP que es

alrededor de los 40 años<sup>1,3,5,6</sup>. No existió predominio de sexo.

De los 17 casos tan sólo uno no presentó clínica respiratoria, siendo un hallazgo radiológico casual; todos los demás en el momento de su diagnóstico referían uno o más síntomas de varias semanas de evolución, apareciendo por orden de frecuencia tos, fiebre, dolor torácico, disnea y hemoptisis. Los datos recogidos evidenciaron una elevada frecuencia de síntomas respiratorios (94 %) que contrasta con las grandes series de PIP, cuya presentación fue, en alrededor de un 50 %, un hallazgo radiológico casual<sup>1,5,6</sup>.

Se encontraron antecedentes de neumonía en 3, siendo de repetición en 2, enfermedad pulmonar obstructiva crónica en 1 y bronquitis de repetición en 1, referenciándose por tanto en un 30 % de los casos patología respiratoria previa, porcentaje similar al recogido en las series de PIP<sup>1,5,6</sup>.

TABLA I  
Seudotumor inflamatorio endobronquial: características clínicas y epidemiológicas de 17 casos

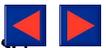
Autores	Edad	Sexo	Clínica	Patrón radiológico
Umiker, 1954 <sup>7</sup>	41	V	Tos	MH
Bates, 1958 <sup>8</sup>	6	V	Tos + fiebre	MH/atelectasia
Mandani, 1967 <sup>9</sup>	3	M	Tos + fiebre	MH/atelectasia
Gerami, 1968 <sup>10</sup>	23	M	Tos + fiebre + dolor torácico	MH/consolidación
Mazumbar, 1969 <sup>11</sup>	45	V	Tos + hemoptisis	MH
Bahadori, 1973 <sup>4</sup>	8	M	Disnea + dolor torácico	Atelectasia
	1	V	Fiebre	Atelectasia
	23	M	Tos	Atelectasia
	1	V	Disnea	Atelectasia
Grossman, 1973 <sup>12</sup>	52	M	Asintomático	MH
Hakimi, 1975 <sup>13</sup>	26	V	Tos + hemoptisis + peso + debilidad	MH
Buell, 1976 <sup>14</sup>	26	M	Tos + disnea + dolor torácico	Atelectasia
	49	V	Dolor torácico	Consolidación
Metha, 1980 <sup>15</sup>	71	V	Tos + disnea	Atelectasia
Vandeurzen, 1990 <sup>16</sup>	23	M	Tos + disnea	MH
Valera, 1992 <sup>17</sup>	13	M	Febrícula + hemoptisis	Consolidación
Oteo, 1992	22	V	Tos + fiebre + dolor	Consolidación + atelectasia

MH: masa homogénea.

TABLA II  
Seudotumor inflamatorio endobronquial: localización, actitud terapéutica y evolución de 17 casos

Autores	Localización	Tratamiento	Evolución
Umiker, 1954	LID	Resección endobronquial:lobectomía	SR
Bates, 1958	LID	Neumonectomía	Fallecimiento
Mandani, 1967	LII	Resección endobronquial:neumonectomía	SR
Gerami, 1968	LID	Lobectomía	SR
Mazumbar, 1969	LID	Lobectomía	SR
Bahadori, 1973	BPI	Resección endobronquial:neumonectomía	SR
	BPI	Resección endobronquial	SR
	BPA	Resección endobronquial	NE
	Tráquea	Resección traqueal	Fallecimiento
Grossman, 1973	LSI	Lobectomía	SR
Hakimi, 1975	Tráquea	Resección traqueal	SR
Buell, 1976	BPI	Resección tras broncotomía	SR
	LSI	Lobectomía	SR
Metha, 1980	LII	Resección endobronquial:radioterapia	R
Vandeurzen, 1990	LII	Resección endobronquial	NE
Valera, 1992	LII	Lobectomía	NE
Oteo, 1992	LID	Lobectomía	SR

LID:lóbulo inferior derecho. BPD: bronquio principal derecho. LII: lóbulo inferior izquierdo. SR: sin recurrencia. LSI: lóbulo superior izquierdo. NE: no especificado. BPI: bronquio principal izquierdo. R: recurrencia. BPA: bronquio principal anterior.



En la evolución radiológica aparecen 3 tipos de imágenes: nódulo o masa homogénea bien circunscrita, atelectasias y masa con consolidación pulmonar y broncograma aéreo. (En 3 pacientes se describieron 2 patrones a lo largo de la evolución.) La localización en pulmón izquierdo fue la más frecuente, y en 2 casos, la localización fue endotraqueal. Se observó un alto porcentaje de atelectasias que difiere de la variante parenquimatosa como se deduce de su desarrollo endobronquial.

Se tomaron biopsias endoscópicas de 12 tumoraciones llegando a un diagnóstico de presunción en 8 de ellas: reticuloendoteliosis (un caso)<sup>9</sup>, adenoma bronquial (un caso)<sup>12</sup>, tejido de granulación (2 casos)<sup>14</sup>, neurilemoma (un caso)<sup>4</sup>, xantoma fibroso (2 casos)<sup>9, 16</sup> y granuloma de células plasmáticas (un caso)<sup>15</sup>. El diagnóstico definitivo por toracotomía sólo confirmó el resultado de las biopsias endoscópicas en los tres últimos. Se deduce entonces que la principal arma diagnóstica es el estudio anatomopatológico de la pieza quirúrgica tras toracotomía.

Anatomopatológicamente, el diagnóstico de estas lesiones se basa en la presencia de un componente celular heterógeno con abundantes células linfoides, plasmáticas e histiocitos. Es preciso realizar el diagnóstico diferencial con la histiocitosis X que se caracteriza por la presencia de células de Langerhans, eosinófilos y áreas fibrosas centrales; y de los procesos linfoproliferativos, que suelen mostrar una mayor homogeneidad y monoclonalidad en el estudio inmunohistoquímico.

Los mejores resultados terapéuticos se obtuvieron tras la lobectomía, sin ninguna recidiva, siendo destacable que el 50 % de los pacientes que fueron tratados inicialmente con resección endoscópica presentó recidiva precisando otras alternativas terapéuticas. A los 2 pacientes de localización endotraqueal se les practicó resección traqueal y anastomosis, y uno de ellos falleció durante la intervención quirúrgica<sup>4</sup>.

Se especifica la evolución en 14 pacientes, siendo el comportamiento habitual la ausencia de recurrencia; además del paciente que falleció en la cirugía, otro paciente lo hizo en 5 años tras neumomectomía, por neumonía del pulmón contralateral.

Las posibilidades terapéuticas de PIP varían desde la vigilancia clínica, cuando el diagnóstico ha sido hecho tras biopsia endoscópica, hasta la cirugía radical; algunos autores<sup>18</sup> hacen referencia a la detección de invasión vascular en una biopsia, como condicionante para una resección mayor. En los PIE el elevado porcentaje de recidiva tras resección tumoral endoscópica junto con los buenos resultados tras lobectomía sugieren el no intentar ser ahorrrativo en el tejido resecado.

La ausencia de recidivas en los pacientes tratados quirúrgicamente apoya la idea de la benignidad de esta tumoración.

Concluimos que en los pacientes jóvenes con tumoración intrabronquial, además de la posibilidad de adenoma bronquial y otros tumores en menor medida<sup>19</sup>, debe tenerse presente la posibilidad de PIE y, ante las posibles complicaciones, una cirugía adecuada es curativa.

## BIBLIOGRAFÍA

- Berardi RS, Lee SS, Chen HP, Stines GJ. Inflammatory pseudotumors of the lung. *Surg Gynecol Obstet* 1983; 156:89-96.
- Golbert ZV, Pletnev SD. On pulmonary "pseudotumors". *Neoplasm* 1967; 14:189-198.
- García Hernández F, Egido García R, Bernardo Ll. Pseudotumores inflamatorios pulmonares. Estudio clinicopatológico de 6 casos. *Arch Bronconeumol* 1988; 24:114-118.
- Bahadori M, Liebow AA. Plasma cell granulomas of the lung. *Cancer* 1973; 31:191-208.
- Matsubara O, Tan-Liu NS, Kenney RN, 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; 19:807-814.
- Spencer H. The pulmonary plasma cell/histiocytoma complex. *Histopathology* 1984; 8:903-916.
- Umiker WO, Iverson L. Postinflammatory "tumors" of the lung. Report of four cases simulating xanthoma, fibroma or plasma cell tumor. *J Thorac Surg* 1954; 28:55-62.
- Bates T, Hull OH. Histiocytoma of bronchus. Report of a case in a 6 years old child. *Am J Dis Child* 1958; 95:53-57.
- Mandani MA, Ross CA, Dafoe CS. Xanthomatous Tumors of the lung. A case report and review of the literature. *Can J Surg* 1967; 10:79-82.
- Gerami S, Moseley TM, Miller EK. Inflammatory pseudotumors of the lung. A report of 2 cases and brief review of the literature. *South Med J* 1968; 61:395-399.
- Mazumbar P, Abraham NS, Damodaran VN, Saha NC. Pulmonary plasmocytoma. A case report. *Am Rev Resp Dis* 1969; 100:866-869.
- Grossman RE, Bemis EL, Pemberton AH, Narodick BG. Fibrous histiocytoma or xanthoma of the lung with bronchial involvement. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1973; 65:653-657.
- Hakimi M, Pai RP, Fine G, Davila JC. Fibrous histiocytoma of trachea. *Chest* 1975; 68:367-368.
- Burell R, Wang NS, Seemayer TA, Ahmed MN. Endobronchial plasma cell granuloma (xanthomatous pseudotumor). A light and electron microscopic study. *Human Pathol* 1976; 7:411-426.
- Metha J, Desphandre S, Stauffer JL, Stanford R, Fernández E. Plasma cell granuloma of the lung. Endobronchial presentation and absence of response to radiation therapy. *South Med J* 1980; 73:1.198-1.201.
- Vandeurzen R, Verschakelen JA. Case report: endobronchial histiocytoma. *Roentgen-BI* 1990; 43:461-462.
- Varela A, Ortega F, Borderas F, Montemayor T, Otero R. Pseudotumor inflamatorio de pulmón. Presentación de 2 casos, uno de ellos endobronquial. *Rev Clin Esp* 1992; 189:422-424.
- Warter A, Satge D, Roeslin N. Angioinvasive plasma cell granulomas of the lung. *Cancer* 1987; 59:435-443.
- Yousem SA, Hochholzer L. Pulmonary hyalinizing granuloma. *Am J Clin Pathol* 1987; 87:1-6.