



TUMORLETS. COMUNICACION DE CUATRO CASOS

E. BERNET VEGUE, M. PALAU BENAVENT* y V. MARCO MARTINEZ*

* Servicio de Anatomía Patológica de Neumología. Hospital La Fe. Valencia

Se presentan cuatro pacientes afectos de tumorlet. Se revisa la literatura, comentándose el diagnóstico, tratamiento y pronóstico de dicha entidad.

Arch Bronconeumol 1986; 82-84

Tumorlets. Four cases report

Four patients with tumorlets are described. A review of the literature is included and the diagnosis, treatment and prognosis for the entity discussed.

Introducción

El término «tumorlet» pulmonar fue acuñado por Whitwell¹ en 1955, refiriéndose a pequeñas lesiones epiteliales que se encontraban de forma incidental en exámenes microscópicos del pulmón.

Liebow el al², ya en el año 1952, habían descrito estas lesiones como pequeños carcinoides bronquiales; Guellich el al³, en 1967, establecen su origen en las células de Kultschitsky, que se encuentran en las membranas basales de los bronquios distales, al demostrar la existencia de gránulos neurosecretores en las células tumorales.

Son pocos los casos publicados en nuestra literatura. Presentamos cuatro casos de tumorlet que fueron diagnosticados de forma casual, entre los años 1980 y 1984 en nuestro hospital.

Observaciones clínicas

Caso 1

Varón de 73 años que acudió a Urgencias de nuestro hospital por hematurias. Entre sus antecedentes destacaba ser fumador de 20 cigarrillos al día desde los 17 años, historia bronquítica con silibancias durante los catarros y un infarto de miocardio de cara inferior un año antes. Fue diagnosticado endoscópicamente de una neoformación vesical, que se reseco durante el acto exploratorio, y resultó tratarse de un carcinoma transicional grado II, sin infiltración de la muscular. La radiología de tórax se encontraba dentro de la normalidad. La espirometría evidenció un patrón ventilatorio obstructivo de grado severo parcialmente reversible. Se le trató con instilaciones locales de oncothiotepa. Reingresó a los seis meses por una in-

fección urinaria por enterobacter con septicemia, falleciendo a los seis días. En la necropsia se encontró un carcinoma de células transicionales de vejiga grado IV, que infiltraba próstata, pericisto y hueso coxal con absceso pélvico paratumoral; había metástasis en ganglios linfáticos ilíacos internos. En los pulmones se demostró la existencia de un enfisema panlobulillar difuso y un tumorlet en un bronquiolo terminal del lóbulo inferior derecho (fig. 1).

Caso 2

Varón de 54 años que acudió a Urgencias de nuestro hospital por hematurias. Entre sus antecedentes destacaba una tuberculosis pulmonar 18 meses antes en tratamiento con tuberculostáticos de forma arbitraria. Hipertenso conocido no tratado. En la radiología de tórax, existía una imagen de aumento de densidad parahiliar derecha, inhomogénea, redondeada, de bordes mal definidos, de unos 6 cm de diámetro y una elevación del hemidiafragma derecho.

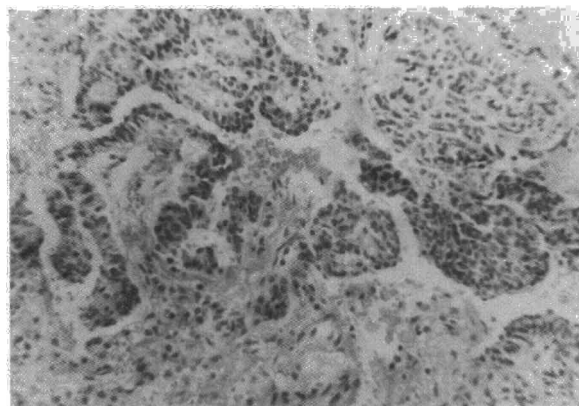


Fig. 1. Estructura microscópica general de los «tumorlets». Células epiteliales proliferando que forman masas sólidas o se disponen en torno a hendiduras.

Recibido el 27-2-1985
y aceptado el 11-5-1985.



La espirometría evidenció un patrón ventilatorio obstructivo de grado moderado, no reversible con el test broncodilatador. Por fibrobroncoscopia, se demostró que se trataba de una tumoración mamelonada fácilmente sangrante que obstruía por completo la luz del bronquio principal derecho. El diagnóstico histológico fue de tumor carcinoide. Se practicó toracotomía derecha con neumonec-tomía. El dictamen histológico fue: tumor carcinoide de bronquio intermediario. Pequeño tumorlet en un bronquiolo terminal del lóbulo inferior derecho. Ganglios hiliares y subcarinales sin infiltración tumoral.

Caso 3

Varón de 77 años que acudió a Urgencias de nuestro hospital por disfagia progresiva de unos tres meses de evolución. Antecedentes personales sin interés. En la radiología de tórax no se observaron hallazgos patológicos y la espirografía estaba dentro de los límites de la normalidad. El esofagograma puso de manifiesto un segmento estenótico a nivel de la unión entre tercio medio y tercio inferior del esófago. Una biopsia obtenida por gastroscopia demostró la existencia de un adenocarcinoma. En la intervención quirúrgica se encontró un tumor esofágico de gran tamaño y carnificación del lóbulo inferior-lateral de esófago a estómago. Se practicó asimismo una lobectomía inferior izquierda y se extirpó un bloque de adenopatías de la coronaria estomáquica. El informe histopatológico del pulmón resecado fue de bronquiectasias en lóbulo inferior izquierdo y múltiples tumorlets. A los seis meses reingresó por mal estado general y recidiva local. La fibrobroncoscopia demostró infiltración del bronquio principal izquierdo. Se decidió instaurar únicamente tratamiento sintomático.

Caso 4

Varón de 53 años, que acudió a Urgencias de nuestro hospital por disnea. Entre sus antecedentes destacaba ser fumador de 40 cigarrillos al día, historia bronquítica con silbancias durante los catarros y una bulla en hemitórax derecho diagnosticada tres años antes. Se trataba de un hombre obeso con hiperemia conjuntival y sibilantes diseminados por ambos campos pulmonares. En los datos analíticos el único hallazgo patológico fue un hematocrito de un 58 %. En la radiología de tórax (fig. 2), se observaba una bulla de hemitórax derecho de unos 10 cm de diámetro. La espirometría evidenció un patrón obstructivo de grado severo que no se modificaba con el test broncodilatador. En la gammagrafía de perfusión pulmonar se apreciaba una anulación de la perfusión en el pulmón derecho, correspondiente a la bulla, localizada en el mismo lugar en la radiología de tórax. Se practicó toracotomía derecha comprobándose la existencia de una gran bulla hiperinsuflada de unos 25 cm de diámetro, que correspondía a lóbulo medio, que estaba reducido a una lengüeta. Se practicó una resección de la bulla. El diagnóstico anatomopatológico fue: pared de bulla enfisematosa, tumorlet en bronquiolo terminal del lóbulo medio.

En todos los casos, el estudio histológico de los tumorlets (fig. 1) demostró tratarse de una proliferación celular de elementos monomorfos, pequeños o de mediano tamaño, que se disponían difusamente o en nidos. Eran de morfología redondeada u oval con núcleos hiper cromáticos y escaso citoplasma. No se evidenció en ninguno de ellos actividad mitótica. Las técnicas para argirofilia y argentafinidad (Sévier y Grimelius) fueron negativos en todos los casos.

Discusión

Los tumorlets están constituidos por pequeños racimos de células epiteliales, más frecuentes en pulmones afectados por bronquiectasias, abscesos pulmonares crónicos, fibrosis, inflamación inespecífica, antracosis, infartos pulmonares antiguos y postirradiación⁴. Predominan en el sexo femenino.

De nuestros cuatro casos, todos varones, dos eran portadores de enfisema, uno sufría bronquiectasias

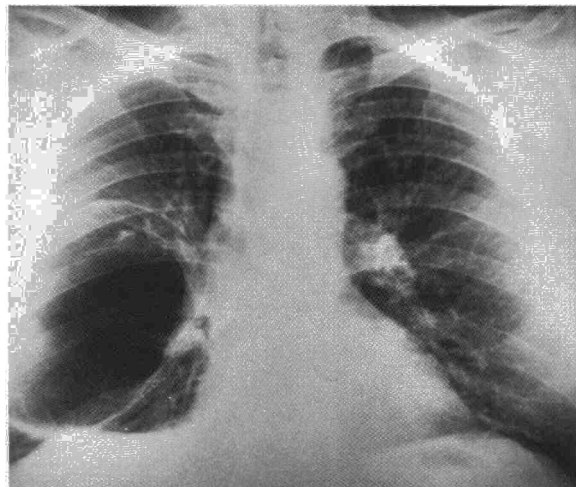


Fig. 2. Radiología posteroanterior de tórax que muestra una gran bulla en hemitórax inferior derecho.

múltiples a nivel del lóbulo inferior izquierdo y, en el cuerpo se detectó un tumor carcinoide a nivel del bronquio intermediario.

Actualmente, se acepta que los tumorlets derivan de las células de Kultschitsky⁵⁻⁹ pulmonares. En un principio, dichas células fueron identificadas en el tracto gastrointestinal por su propiedad de reducir las sales de plata y por la presencia de gránulos neurosecretorios en su citoplasma, que son idénticos a los hallados en los tumores carcinoideos y en los carcinomas de células pequeñas^{5,7,10}. Laweryns aporta datos que apoyan el origen neuroepitelial de las células de Kultschitsky, que serían incluidas en el sistema APUD⁵. Pueden producir 5-hidroxi-triptamina y 5-hidroxi-triptófano, por lo que pueden mostrar positividad para argirofilia y argentafinidad respectivamente, siendo la primera la más frecuente en los de localización pulmonar⁵. En ninguno de nuestros casos pudo demostrarse positividad para alguna de estas tinciones^{6,11}.

Se observa gran similitud entre el carcinoide periférico y el tumorlet. La morfología, características de tinción y microscopía electrónica, sugieren que los tumorlets son diminutos carcinoideos periféricos^{5,6,8,11,12}.

En la mayoría de los casos, corresponden a hallazgos casuales en el estudio microscópico del pulmón, como ocurrió en nuestros cuatro pacientes, aunque ocasionalmente, pueden producir hemoptisis⁸. Por su localización generalmente periférica, no son visibles con el fibrobroncoscopio.

La espirometría puede evidenciar un patrón restrictivo por sustitución del parénquima pulmonar por tejido conectivo reactivo al tumorlet, aunque también ha sido descrito un patrón mixto restrictivo y obstructivo por invasión tumoral de las vías aéreas pequeñas⁸. En tres de nuestros casos, el patrón espirométrico fue de tipo obstructivo, hallazgo que relacionamos con su patología subyacente, debida al tabaquismo, y no con la existencia del tumorlet.



El comportamiento de los tumorlets suele ser benigno, aunque existen casos bien documentados de metástasis en los ganglios linfáticos regionales^{11, 13}. Ello justifica un estudio exhaustivo de la pieza quirúrgica y de sus adenopatías, así como un control evolutivo del paciente.

BIBLIOGRAFIA

1. Whitwell F. Tumorlets of the lung. *J Pathol Bacteriol* 1955; 70:529-541.
2. Liebow AA. Tumors of the lower respiratory tract. Atlas of tumor pathology. Section V-Fascicle 17. Washington DC, Armed Forces Institute of Pathology 1952.
3. Gmelich JT, Bensch KG, Liebow A A. Cells of Kultschitsky type in bronchiols and their relation to the origin of peripheral carcinoid tumor. *Lab Invest* 1967; 17:88-98.
4. Fraser RG, Paré PJA. Enfermedades del tórax producidas por agentes físicos externos. En: *Diagnóstico de las enfermedades del tórax*. Barcelona, Salvat Ed, 1982; 1887.
5. Salyer DC, Salyer WR, Eggleston J.C. Bronchial carcinoid tumors. *Cancer* 1975; 36:1522-1537.
6. Ranchod M. The histogenesis and development of pulmonary tumorlets. *Cancer* 1977; 39:1135-1145.
7. Bonikos DS, Bensch KG, Jamplis RW. Peripheral pulmonary carcinoid tumors. *Cancer* 1976; 37:1977-1998.
8. Miller MA, Mark GJ, Kanarek D. Multiple peripheral pulmonary carcinoids and tumorlets of carcinoid type, with restrictive and obstructive lung disease. *Am J Med* 1978; 65:373-378.
9. Rosai J. Respiratory tract/lung and pleura. En: *Ackerman's Surgical Pathology*. St Louis, Masby Ed 1981; 227.
10. Capella C, Gabrielli M, Polak JM, Buffa R, Solcia E, Bordi C. Ultrastructural and histological study of 11 bronchial carcinoids. *Virchows Arch A Path Anat Histol* 1979; 381: 313-329.
11. Llanes F, Morán J, Aragoncillo P, Furió V, Fariña J. Tumorlets: aspectos clínico-patológicos de cinco pacientes. *Patología* 1984; 17:95-100.
12. Mark E.J. Pathology of bronchopulmonary neoplasms. En: *Choi NC and Grillo HC. Ed. Thoracic Oncology*. New York, Raven Press 1983; 34.
13. Churg A, Warnock ML. Pulmonary tumorlet: a form of peripheral carcinoid. *Cancer* 1976; 37:1469-1477.