



# MESOTELIOMA PLEURAL HIPOGLUCEMIANTE

C. HERNANDEZ ORTIZ, E. CANALIS ARRAYAS, J. VELASCO ALONSO\*,  
E. MENENDEZ TORRE\*\* y A. ROIG VERGE

Departamento de Cirugía. Sección de Cirugía Torácica.  
Departamento de Anatomía Patológica.\*  
Departamento de Medicina Interna.  
Sección de Endocrinología.\*\*  
Ciudad Sanitaria N.º S.º de Covadonga.

Se aporta un caso de tumor mesotelial benigno asociado a una hipoglucemia extrapancreática. Estos tumores son de aparición muy poco frecuente, y constituyen el síndrome de Doege-Potter. La clínica fundamental se debe a manifestaciones neurológicas durante las crisis hipoglucémicas. Sólo la ablación del tumor permite prevenir estas crisis.

## Hypoglycemic pleural mesothelioma

A case of mesothelial benignant tumor associated to extrapancreatic hypoglycemia is reported. These tumors are very uncommon, constituting the Doege-Potter syndrome. Their main clinical features are caused by neurological symptoms during hypoglycemic crises. These can only be prevented by tumor resection.

*Arch Bronconeumol 1984; 20:173-175.*

## Introducción

El mesotelioma benigno de la pleura es un tumor de escasa frecuencia, y generalmente de sintomatología discreta. En ocasiones puede asociarse a manifestaciones extratorácicas, como una osteopatía hipertrófica<sup>1</sup>, o menos habitualmente a una hipoglucemia de origen extrapancreático, constituyendo el síndrome que Doege y Potter describieron simultáneamente en 1930<sup>2,3</sup>.

La hipótesis más aceptable para explicar la etiología del síndrome hipoglucémico, es la que se basa en el aumento de una glucoproteína llamada *non suppressible insulinlike* (NSIL), aislada recientemente y con actividad insulínica elevada<sup>4</sup>.

Aportamos un caso de mesotelioma hipoglucemiante intervenido por nosotros, y hacemos una valoración de conjunto con el resto de las escasas publicaciones que existen al respecto.

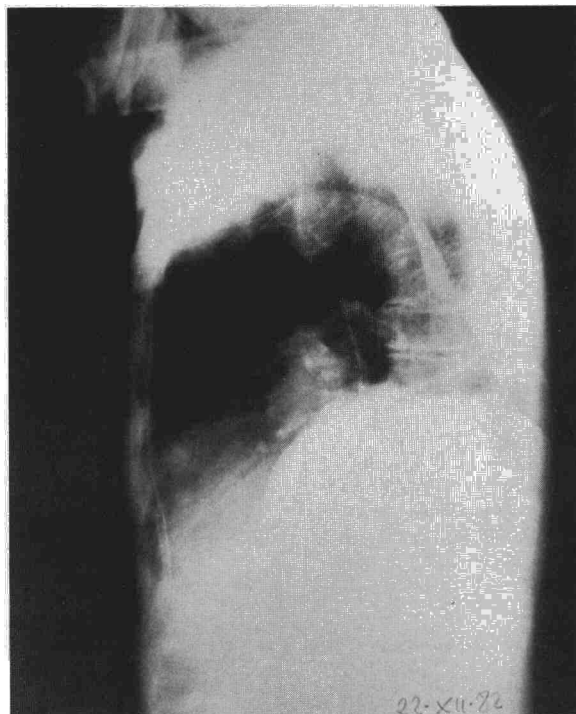
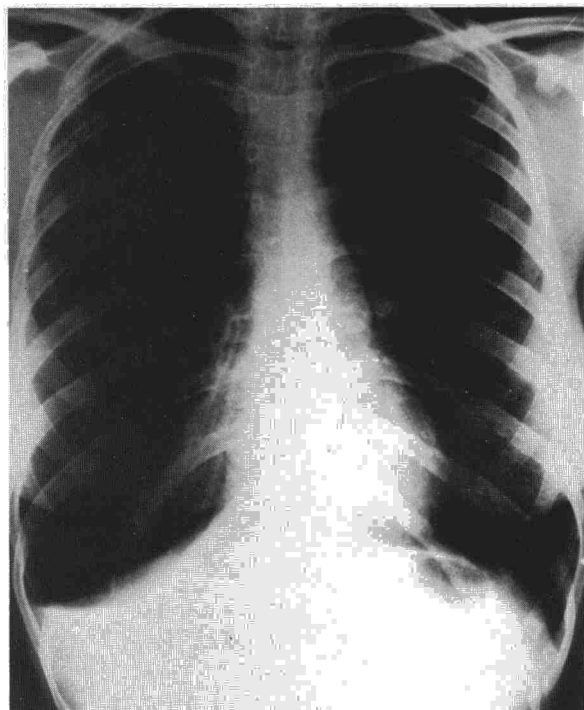
Recibido el 12-9-1983 y aceptado el 7-11-1983.

## Observación clínica

Paciente de 72 años, hospitalizado por un cuadro de mareo, sudoración y confusión mental. Desde dos meses antes de su ingreso padeció varios episodios similares que cedieron espontáneamente, o tras la ingesta de alimentos. En la exploración sólo destaca una disminución del murmullo vesicular en el tercio inferior del hemitórax derecho. La radiografía de tórax (figs. 1 y 2), muestra una masa localizada a nivel de base pulmonar derecha. En la analítica hemática lo único que llama la atención son las hipoglucemias mercaadas en los controles sucesivos: 14, 42, 48 y 36 mg % respectivamente, junto a valores de insulínemia normales o ligeramente elevados. La broncofibroscopia muestra una compresión extrínseca del bronquio lobar inferior derecho, sin otras alteraciones. Ecografía y TAC abdominal normales.

Se decide intervención quirúrgica (fig. 3) realizándose una toracotomía lateral derecha, encontrando una masa de unos 13 cm de diámetro, con abundantes sinequias pleurales, encapsulada y situada en la base pulmonar por debajo de la pleura visceral. Tras su despegamientos se extrae íntegramente. El postoperatorio transcurrió sin complicaciones, existiendo una normalización inmediata de las cifras de glucemia, y una desaparición de la sintomatología clínica.

Observaciones anatomopatológicas: macroscópicamente el tumor, de morfología esférica, pesaba 625 g, su diámetro máxi-



Figs. 1 y 2. Radiografías anteroposterior y lateral de tórax, en las que se observa una gran opacidad en la base pulmonar derecha.

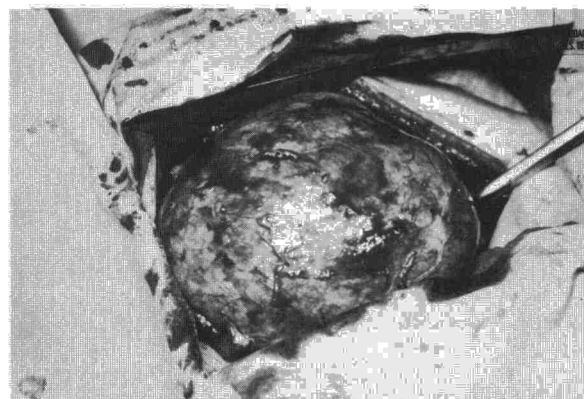


Fig. 3. Visión quirúrgica de la lesión.

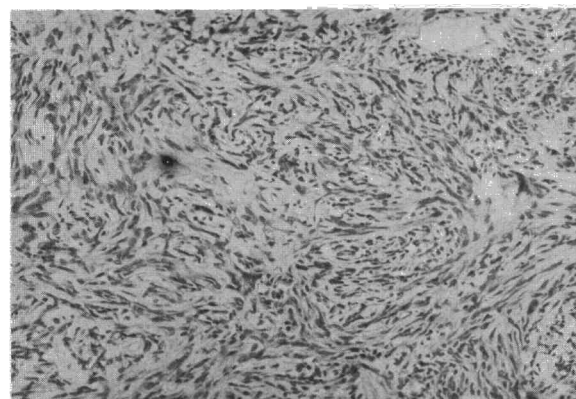


Fig. 4. Detalle de la citología del tumor, en el que se aprecia una celularidad de aspecto fibroblástico, sin atipias nucleares, ni figuras mitóticas. Estas células se agrupan formando haces entrecruzados.

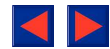
mo era de 11 cm y estaba revestido por una cápsula fina, transparente. Al corte se observa un material de consistencia elástica, de color blanquecino y aspecto fibroso con cavidades quísticas sin contenido alguno. A nivel histológico (fig. 4), se observa en todos los campos estudiados una proliferación de células fusiformes de tamaño similar, núcleo ovalado con cromatina de grano fino distribuida uniformemente y ausencia de figuras mitóticas.

**Discusión**

Los tumores intratorácicos hipoglucemiantes, constituyen el síndrome de Doege-Potter, y se integran dentro del grupo de los tumores hipogluce-

miantes extrapancreáticos (THE). El síndrome hipoglucemiante se ha descrito asociado a tumores de origen epitelial, pero las neoplasias más frecuentemente asociadas a hipoglucemia son los tumores mesenquimatosos de abdomen y tórax<sup>5</sup>, a pesar de su escasa incidencia. En una revisión de Shabanah en 1971, de 150 casos recopilados de mesoteliomas benignos recogidos en un período de 30 años, ninguno presentaba hipoglucemia<sup>6</sup>.

Desde el punto de vista anatomopatológico los THE intratorácicos más frecuentes son los mesoteliomas y los fibrosarcomas. En una revisión de Anderson en 1979, de 115 casos de tumores mesenquimatosos de distintas localizaciones, sólo 38



eran intratorácicos, y de éstos el 63 % eran mesoteliomas y fibrosarcomas<sup>7</sup>.

Clínicamente el mesotelioma benigno suele aparecer en adultos, y con igual incidencia en ambos sexos<sup>8</sup>, puede permanecer asintomático mucho tiempo, pudiendo ser un hallazgo casual en un estudio sistemático, como ocurre en muchos de los casos publicados<sup>9</sup>. Ocasionalmente aparece dolor torácico, tos irritativa o disnea. Y como señalaron Wieman et al, en 1954, el fibrosarcoma pleural sería el tumor torácico que presenta más frecuentemente una osteoartropatía hipertrófica<sup>1</sup>. Sin embargo una hipoglucemia<sup>10</sup>, o un hipertoridismo<sup>11</sup>, serían manifestaciones extratorácicas extremadamente raras, aunque reveladoras.

Las crisis hipoglucémicas se presentan como confusión mental, episodios maníacos, trastornos neurológicos e incluso coma hipoglucémico. La glucemia basal suele estar por debajo de 0,50 g/l, y disminuye con la prueba del ayuno. La tasa de insulinemia suele ser normal o baja, descartando la existencia de un adenoma pancreático<sup>12</sup>.

Existen varias teorías fisiopatológicas que intentan explicar esta hipoglucemia, como la existencia de una metaplasia insular del páncreas, una inhibición de la neoglucogénesis hepática, un consumo exagerado de glucosa por parte del tumor, o una secreción por parte de éste de una sustancia con actividad insulínica. Esta última teoría sería la más convincente hasta el momento, como prueban los estudios de Chandalia<sup>13</sup>, demostrando un aumento de la actividad insulínica total del suero o del tejido tumoral, medidas por métodos biológicos, en comparación con medidas de insulina por métodos radioinmunológicos normales o bajos<sup>14</sup>. En 1975, Poffenbarger aisló una glucoproteína de peso molecular 90.000, llamada *non suppressible insulinlike* (NSIL)<sup>4</sup>, y Maunaud en 1980, describe el segundo caso de THE con NSILP elevada, que se normalizó tras la resección quirúrgica del tumor<sup>15</sup>.

El tratamiento es evidentemente quirúrgico, pues sólo con la extirpación del tumor desaparecen la hipoglucemia y la sintomatología clínica<sup>16</sup>. Se han descrito recidivas locales tras la resección quirúrgica, incluso después de 16 años del primer gesto quirúrgico<sup>17</sup>. A menudo la toracotomía

cumple un doble cometido, diagnóstico y terapéutico, ya que sólo el estudio histológico de la pieza asegurará el diagnóstico definitivo<sup>18</sup>.

#### BIBLIOGRAFIA

1. Wierman WH, Clagett CT, Mac Donald JR. Articular manifestations in pulmonary disease. JAMA 1954, 155:1459-1461.
2. Doege KW. Fibrosarcoma of the mediastinum. Ann Surg 1930; 92: 955-960.
3. Potter RP. Intrathoracic tumors: case report. Radiology 1930; 14:60-61.
4. Poffenbarger PL. The purification and partial characterization of an insulin like protein from human serum. J Clin Invest 1975; 56:1455-1463.
5. Thorbeck CV, Patino JV, Obispo JM, Abads Pinillos FM, Villar A, Aragoncillos P, Alvarez JP. Fibrosarcoma de pulmón hipoglucemiante. Rev Clin Esp 1979; 159:229-233.
6. Shabanah FH, Saygh SF. Solitary localized pleural mesothelioma. Chest 1971; 60:558-563.
7. Anderson N, Lockich JJ. Mesenchymal tumors associated with hypoglycemia. Cancer 1979; 44:785-789.
8. Rodríguez Panadero F. Mesotelioma pleural. Ponencia a Simposium Nacional de Asbestosis. Sevilla, 5 y 6 de octubre, 1978.
9. Blanchon F, Vettel B, Brocard H. Etude clinique des fibromes de la plèvre. Poumon Coeur 1978; 34:145-152.
10. Aubert M, Gordeff A, Barrie J, Sarrazin R, Dyon JF, Brambilla C, Parent B, Coulomb M. Deux nouveaux cas de tumeurs pleurales bénignes hypoglycémiantes. Poum Coeur 1982; 38:167-175.
11. Devroede GJ, Tirol AF. Giant pleural mesothelioma associated with hypoglycemia and hyperthyroidism. Am J Surg 1968; 116:130-134.
12. Riquet M, Zorbib M, Debess B. Tumeurs mésenchymateuses primitives hypoglycémiantes de la plèvre (Syndrome de Doege-Potter). A propos d'un cas. Poum Coeur 1982; 38:177-183.
13. Chandalia HB, Boshell BR. Hypoglycemia associated with extrapancreatic tumors. Report of 2 cases with studies on its pathogenesis. Arch Intern Med 1972; 129:447-456.
14. Nelson R, Burman SO, Kiwi R, Cherto BS, Shah J, Cantave I. Hypoglycemic coma associated with benign pleural mesothelioma. J Thorac Cardiovasc Surg 1975; 69:306-314.
15. Maunaud B, Benoit A, Ben Slama C, Becot F. Tumeur mésenchymateuse hypoglycémiant de la cuisse. Présence d'une protéine circulante d'activité insulínique élevée. Nouv Presse Méd 1980; 29:2005-2008.
16. Merlier B, Le Brigand H, Wapler C. Chirurgie des tumeurs pleurales primitives. Poumon Coeur 1968; 24:521-526.
17. Utley JR, Parker JC, Hahn RS, Bryant LR, Nolin-Uddin K. Recurrent benign fibrosus mesothelioma of the pleura. J Thorac Cardiovasc Surg 1973; 65:830-834.
18. Bunton RW, Borrie J. Pleural fibromas: A clinical review and report of six patients. Ann Thorac Surg 1982; 33:609-612.