

PULMON CLARO UNILATERAL Y NEUMOMEDIASTINO DEBIDO A TUMOR BRONQUIAL MUCOEPIDERMÓIDE

F. MIRALLES LOZANO, A. VALENCIA RODRIGUEZ,
F. ESPILDORA SANCHEZ, J. MERINO VERDUGO y
M. ROSALES JALDO

Sección de Neumología. Departamento de Medicina
Interna. Ciudad Sanitaria Carlos Haya. Málaga

Introducción

La no visualización de un adenoma bronquial en una radiografía simple de tórax anteroposterior y lateral, aunque no es habitual, ha sido descrita por algunos autores. Así, Giustra y Stassa¹ encuentran 21 casos de 99 adenomas, aunque 15 de ellos fueron un hallazgo casual *post mortem*. Okike y cols.² observan que 21 de 203 casos de tumor carcinoide bronquial tenían una radiografía de tórax normal.

Aún más raro es que el adenoma bronquial se presente radiológicamente como un pulmón claro unilateral. Después de revisar extensamente la literatura, solamente hemos encontrado ocho con esta alteración radiológica³⁻⁸; ninguno de ellos era del tipo mucoepidermoide. Por otro lado, no hemos encontrado ningún tipo histológico de adenoma bronquial asociado con neumomediastino.

Observación clínica

El 6-10-1978 acudió a nuestra consulta externa de Neumología un varón de 15 años refiriendo que en febrero del mismo año había comenzado a notar episodios febriles de hasta 40° C, tos de expectoración blanquecina ocasionalmente hemoptoica, pitos y disnea de medianos esfuerzos. No fumaba y no tenía antecedentes previos de enfermedad pulmonar. La exploración del tórax demostró roncus y sibilancias en ambos campos pulmonares, siendo el resto del examen físico negativo. El electrocardiograma y los análisis de rutina, incluyendo alfa-1-antitripsina y perfil hepático, fueron normales. La radiografía simple de tórax demostró un pulmón claro unilateral (fig. 1). Las tomografías de tórax ra-

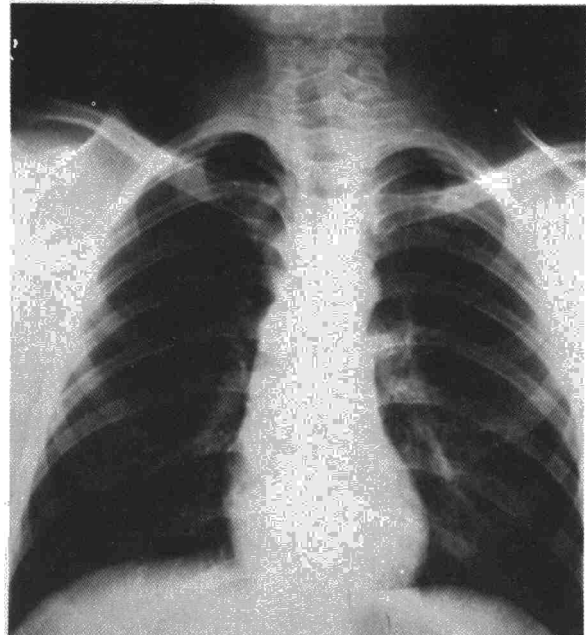


Fig. 1. Radiografía posteroanterior de tórax mostrando un aumento de la transparencia del pulmón derecho con disminución del árbol vascular y del hilio de este lado.

tificaron este hallazgo. La arteriografía pulmonar demostró una disminución del flujo sanguíneo en todo el lado derecho sin otra anomalía selectiva; la presión arterial pulmonar media y de enclavamiento eran normales en reposo. Los datos de la función pulmonar se resumen en la tabla I. Con la sospecha diagnóstica de enfisema pulmonar unilateral de Swyer-James con bronquiectasias, el 15-12-1978 se realizó una cinebroncografía derecha que reveló un defecto de llenado a nivel del bronquio principal de este lado compatible con masa tumoral. El 24 del mismo mes, y cuando se encontraba pendiente de realizar el estudio endoscópico, fue hos-

Recibido el día 21 de julio de 1980.



Fig. 2. Una línea delgada (flechas) paralela a la silueta cardiovascular indicaba la presencia de gas en el mediastino.

pitalizado por aquejar un episodio repentino, dolor torácico anterior y hemoptisis. La ventilación estaba disminuida en la base pulmonar derecha y se oían finos crepitantes en el área retroesternal que no sincronizaban con el ritmo cardíaco; el resto del examen físico era negativo. La radiografía simple de tórax reveló un neumomediastino (fig. 2). En las tomografías selectivas sí se demostró entonces la tumoración intrabronquial. El mapa óseo fue normal. En la fibrobroncoscopia se visualizó una tumoración blancorrojiza ocluyendo casi completamente el bronquio principal derecho, justo por en-

TABLA 1
Función pulmonar

DATO	REAL	TEORICO
% VC	3,20	5,07
FRC	3,53	2,84
RV	2,58	1,03
TLC	5,78	6,14
FEV ₁	2,20	4,15
MEFV-25 %	2,8	8,4
MEFV-50 %	1,6	6,2
MEFV-75 %	0,8	3,7
Raw	8,8	2,5
MMEF	1,6	4,5
D _L CO-SB	29,2	25
MPI	19,75	30
C _{st}	0,080	0,200
C _{dy}	0,055	0,160
V _E	11,3	7,5
V _d /V _T	45	30
(A-a)O ₂	25	10
(a-A)CO ₂	4	4
DuCO ₂ -C	0,90	0,9
DuCO ₂ -V	0,61	0,7
PaO ₂	85	85
PaCO ₂	38	40

VC: Capacidad Vital en litros (l); FRC: Capacidad Residual Funcional (l); RV: Volumen Residual (l); TLC: Capacidad Pulmonar Total (l); FEV₁: Volumen Forzado Espirado en 1 seg (l); MEFV-25, -50, -75 %: Flujos Máximos Espirados al 25, 50 y 75 % de la-VC (l/seg); MMEF: Flujo Mesoexpiratorio (l/seg); Raw: Resistencia de las vías aéreas (cm H₂O/l/seg); MPI: Máxima Presión Inspiratoria (cm H₂O); C_{st}: Compliance Estática (l/cm H₂O); C_{dy}: Compliance dinámica a 40 por minuto (l/cm H₂O); V_E: Volumen Minuto (l); V_D: Espacio Muerto Fisiológico; V_T: Volumen Corriente; (A-a)O₂: Gradiente alveolo-arterial de O₂; (a-A)CO₂: Gradiente arterio-alveolar de CO₂ (mmHg); DuCO₂: Ductance al CO₂, Ventilatoria (-V) y Circulatoria (-C) (mm Hg); D_LCO-SB: Capacidad de Difusión de CO por Single Breat (ml/min/torr); PaO₂ y PaCO₂: Presión arterial de O₂ y CO₂ (mm Hg).

cima de la salida del lobar superior, debido a la posibilidad de hemorragia severa no se tomó biopsia. El 8-1-1979 se realizó una lobectomía superior derecha con resección en maniguito del bronquio principal e intermediario y anastomosis término-terminal de ambos; había una masa redondeada de unos cuatro cm de diámetro bien delimitada y la pared bronquial no estaba rota. El diagnóstico histológico fue de tumor mucoepidermoide de baja malignidad grado I;⁹ el parénquima pulmonar y algunos ganglios linfáticos vecinos eran normales. Un año después de la intervención quirúrgica el paciente se encontraba asintomático.

Discusión

Swyer y James en 1953¹⁰, MacLeod en 1954¹¹, y más tarde otros autores¹²⁻¹⁹, revisaron la etiopatogenia del pulmón claro unilateral. Según Kent¹⁹, los hallazgos radiológicos junto con la disminución de la perfusión arterial pulmonar y deficiente captación de oxígeno en el lado afecto, constituyen la tríada fundamental de anomalías observadas en estos pacientes. Los tests de función pulmonar en el caso que aportamos demostraron atrapamiento aéreo y obstrucción a nivel de las vías aéreas de grande y pequeño calibre; había una ligera elevación del espacio muerto fisiológico y gradiente alveoloarterial de oxígeno, reflejando alteraciones en la relación ventilación/perfusión; es posible que el mecanismo valvular producido por el tumor fuese la causa de la disminución al mismo tiempo de la compliance estática y máxima presión inspiratoria.

La hipoperfusión pulmonar ha sido descrita como debida a un adenoma comprimiendo la arteria pulmonar¹, sin embargo los factores etiológicos más frecuentes en relación con esta rara asociación son: 1) humorales, relacionados con la variedad carcinoide y por sustancias vasoactivas segregadas por el tumor (serotonina, kalikreina, prostaglandinas), 2) el incremento de la presión alveolar secundario al atrapamiento aéreo produciría una redistribución contralateral de flujo sanguíneo, 3) la hipoxia local relacionada con la distensión alveolar es probablemente el factor más importante⁶. A su vez, la presencia de neumomediastino sólo puede ser explicada por dos mecanismos: 1) rotura de la pared bronquial, 2) infiltración del intersticio pulmonar por aire secundariamente a la hiperdistensión alveolar. La integridad de la pared bronquial observada durante la intervención, así como el estudio de la función pulmonar, apoyan fuertemente la posibilidad de este segundo mecanismo.

La falta de literatura médica ha creado alguna confusión sobre la malignidad del tumor bronquial mucoepidermoide²⁰⁻²⁴. El caso aportado parece coincidir con la tendencia actual a aceptar la existencia de un paralelismo entre la evolución clínica, el aspecto broncoscópico y el grado de malignidad histológica²⁵⁻²⁹.

Agradecimiento

Nuestro agradecimiento a la Dra. Isabel García del Servicio de Anatomía Patológica por su colaboración en la realización de este trabajo.

Resumen

Aportamos un caso de tumor bronquial mucoepidermoide localizado en zona ciega radiológica produciendo un pulmón claro unilateral con atrapamiento aéreo e hipoperfusión en el lado derecho. La asociación con un episodio de neumomediastino es extremadamente rara, y no la hemos encontrado descrita en nuestra revisión bibliográfica.

Summary

UNILATERAL CLEAR LUNG AND PNEUMOMEDIASTINUM DUE TO MUCOEPIDERMOID BRONCHIAL TUMOR

The authors contribute one case of mucoepidermoid bronchial tumor that was located in a radiologic blind zone and that produced unilateral clear lung with trapped air and hypoperfusion on the right side. The association of this picture with an episode of pneumomediastinum is extremely rare, and the authors did not find any similar case mentioned in the medical bibliography they reviewed.

BIBLIOGRAFIA

- GIUSTRA, P. E. y STASSA, G.: The multiple presentations of bronchial adenomas. *Radiology*, 93: 1.013, 1969.
- OKIKE, N., BERNATZ, P. E. y WOOLNER, L. B.: Carcinoid tumors of the lung. *Annals of Thoracic Surgery*, 22: 272, 1976.
- BROOKS EMORY, W., MITCHELL, W. T. y HATCH, H. B.: Mucous gland adenoma of the bronchus. *Am. Rev. Respir. Dis.*, 108: 1.407, 1973.
- MCGUINNIS, E. J. y LULL, R. J.: Bronchial adenoma causing unilateral absence of pulmonary perfusion. *Radiology*, 120: 367, 1976.
- OKIKE, N., BERNATZ, E., SPENCER, P. W., WOOLNER, L. B. y LEONARD, P. F.: Bronchoplastic procedures in the treatment of carcinoid tumors of the tracheobronchial tree. *J. Thor. Cardiovasc. Surg.*, 76: 281, 1978.
- HEPPER, N. G., SPENCER, P. W., SHEPS, S. F. y HYATT, R. E.: Unilateral hypoperfusion of the lung and carcinoid syndrome due to bronchial carcinoid tumor. *Am. Rev. Respir. Dis.*, 115: 341, 1977.
- CHAUDHURI TAPAN, K., CHAUDHURI TUHIN, K., SCHAPIRO, R. L. y CHRISTIE, J. H.: Abnormal lung perfusion in a patient with bronchial adenoma. *Chest*, 62: 110, 1972.
- LAWSON, R. M., RAMANATHAN, L., HURLEY, F., HINSON, K. W. y LENNOX, S. C.: Bronchial adenoma: review of an 18-year experience at the Brompton Hospital. *Thorax*, 31: 245, 1976.
- GOLDSTRAW, P., LAMP, P. H., MacCORMAK, R. J. M., WALBAUM, P. R.: The malignancy of bronchial adenoma. *J. Thor. Cardiovasc. Surg.*, 72: 309, 1976.
- SWYER, P. R., JAMES, G. C. W.: A case of unilateral pulmonary emphysema. *Thorax*, 8: 133, 1956.
- MacLEOD, J.: Abnormal transradiancy of one lung. *Thorax*, 9: 147, 1954.
- VAUGHAN, B. F.: Syndromes associated with hypoplasia or aplasia of one pulmonary artery. *J. Faculty Radiologist*, 9: 161, 1958.
- SIMON, G. y REID, L.: Unilateral lung transradiancy. *Thorax*, 17: 230, 1962.
- ELDER, J. C.: Unilateral pulmonary artery absence or hypoplasia. *Circulation*, 17: 557, 1958.
- PROWSE, C. M., FUCHS, J. E., KAUFMAN, S. A. y GAENSLER, E. A.: Chronic obstructive pseudoemphysema. *N. Engl. J. Med.*, 271: 127, 1964.
- O'DELL, C. W., TAYLOR, A., HIGGINS, C. B., ASHBURN, W. L., SCHILLACI, R. F. y ALAZRAKI, N. P.: Ventilation-perfusion lung images in the Swyer-James syndrome. *Radiology*, 121: 423, 1976.
- HISLOP, A. y REID, L.: New Pathological findings in emphysema of children: Overinflation of a normal lobe. *Thorax*, 26: 190, 1971.
- CLAVIER, J. y KERBRAT, G.: Diagnostic d'un poumon clair unilateral. *Poumon et Coeur*, 33: 116, 1977.
- VERNON, N. H., KENT, D. C. y FORSBURG, R. G.: Unilateral hyperlucent lung: A study in pathophysiology and etiology. *Am. J. Med. Sc.*, 253: 406, 1967.
- TRENTINI, G. P. y PALMIERI, B.: Mucoepidermoid tumor of the trachea. *Chest*, 62: 336, 1972.
- HEILBRUN, A. y CROSBY, I. K.: Adenocystic carcinoma and mucoepidermoid carcinoma of the tracheobronchial tree. *Chest*, 61: 145, 1972.
- WELBORN, M. B.: Mucoepidermoid carcinoma of bronchus with chondroid metaplasia and elevated 5-hydroxyindoleacetic acid excretion. *J. Thor. Cardiovasc. Surg.*, 57: 618, 1969.
- DIACONITZ, G. y ESKENASY, A.: Les tumeurs mucoépidermoïdes bronchopulmonaires. Etude anatomoclinique de cinq cas opérés. *Poumon et Coeur*, 30: 265, 1974.
- AXELSON, C., BURCHARTH, E. y JOHANSEN, A.: Mucoepidermoid lung tumors. *J. Thor. Cardiovasc. Surg.*, 65: 902, 1973.
- LEONARDI, H. K., JUNG, LEG, Y., LEGG, M. A. y NEPTUNE, W. E.: Tracheobronchial mucoepidermoid carcinoma. *J. Thor. Cardiovasc. Surg.*, 76: 431, 1978.
- CONLAN, A. A., SPENCER, P. W. y WOOLNER, L. B.: Adenoid cystic carcinoma and mucoepidermoid carcinoma of the bronchus. *J. Thor. Cardiovasc. Surg.*, 76: 369, 1978.
- MEDELLI, J., LATTAGNANT, J. C., BOVE, N.; BERTOUX, J. P.; GOUDOT, V. y PIETRI, J.: Tumeurs muco-épidermoïdes bronchiques. *Poumon*, 35: 47, 1979.
- BONNAUD, G., LEVEL, M. C. y THESUT, M. C.: Les tumeurs muco-épidermoïdes des bronches. A propos de trois cas. *Poumon*, 35: 43, 1979.
- RIBET, M.: Round table on so-called benign tracheobronchial tumors. *Ann. Chirur. Thor. Cardiovasc.*, 33: 509, 1979.