

Notas clínicas

Servicio de Cirugía Torácica
(Dr. F. París). Departamento
de Cirugía. Centro Hospitalario
de la Seguridad Social La Fe. Valencia

PAPILOMATOSIS LARINGOTRAQUEOBRONQUIAL

J. Pastor, M. Casillas, A. Cantó, V. Tarazona, E. Blasco y F. París.

Introducción

La papilomatosis traqueobronquial es una afección poco frecuente que se presenta bajo tres formas anatómicas-clínicas: 1) La papilomatosis traqueobronquial difusa, consecutiva la mayoría de las veces a papilomatosis laríngea, 2) Los papilomas bronquiales múltiples, limitados generalmente a un solo lado y 3) Los papilomas únicos o solitarios, de presentación excepcional.

El propósito de este trabajo es presentar un caso de papilomatosis laringotraqueobronquial, haciendo las consideraciones oportunas sobre esta forma tumoral.

Observación Clínica

T.C., mujer de 21 años, casada, con una larga historia clínica de disnea, estridor y ronquera, que comienza al año y medio de edad. Diagnosticada de papilomatosis laríngea, es sometida a reiteradas sesiones de electrocoagulación. A pesar de ello la enferma no mejora y con motivo de una crisis asfíctica se le practica una traqueotomía, con la que persiste hasta la actualidad.

Desde entonces viene padeciendo de forma repetida catarros bronquiales, con fiebre, tos y expectoración purulenta, de olor fétido, a veces hemoptoica. Ocasionalmente expulsaba formaciones verrugosas a través del traqueostoma.

La exploración física revela (22-8-72), una enferma con hábito infantil y mal estado general, con un traqueostoma cervical a través

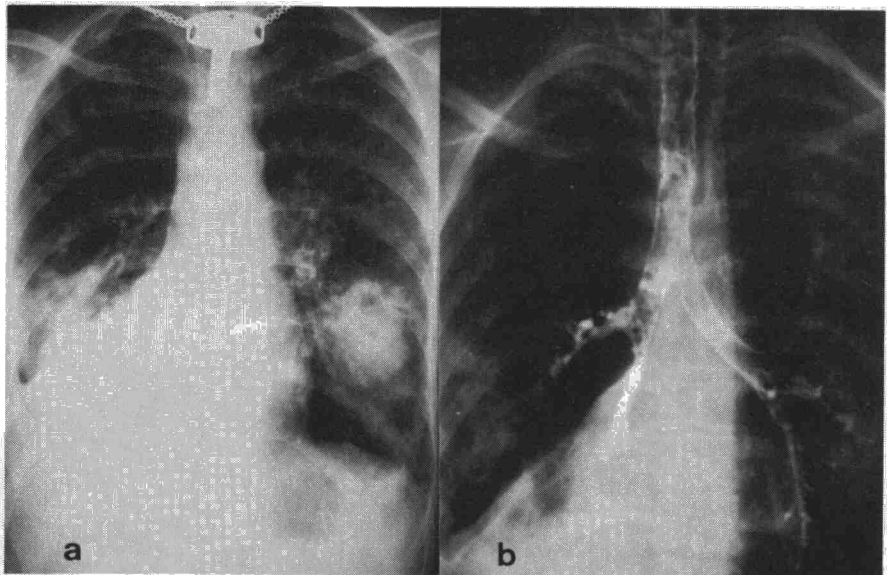
del cual se ven una serie de masas tumorales. A la auscultación pulmonar se perciben estertores húmedos en ambos hemitórax, con mayor predominio en el lado derecho en cuya base se ausculta un soplo bronquial. Biológicamente cabe destacar una V.G.S. de 32 mm de Hg. a la primera hora. En el cultivo de esputo se aislan *Proteus Mirabilis*.

En la radiografía existe una atelectasia de los lóbulos inferior y medio derecho unida a focos de condensación parenquimatosa, algunos excavados, extendidos por ambos campos

pulmonares (fig. 1 a). La traqueobroncografía, muestra imágenes lacunares en tráquea y bronquio derecho (fig. 1b).

La endoscopia practicada a través del estoma cervical evidencia una tráquea sembrada de masas polipoideas que disminuyen la luz e impiden el paso de la óptica más allá de la carina. En ambos bronquios principales se aprecian lesiones similares, preferentemente en el lado derecho, donde existe una tumoración de gran tamaño que obstruye casi por completo su entrada (figs. 2a, b y c). La larin-

Fig. 1. a: Radiografía de tórax, b: Traqueobroncografía.



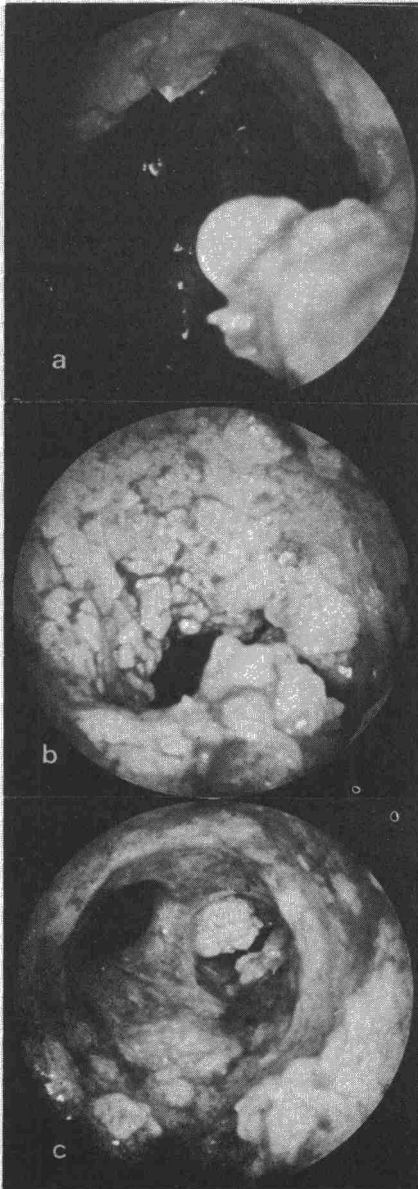


Fig. 2 Aspectos endoscópicos traqueales: a: Tercio superior. b: Tercio medio. c: Tercio inferior.

goscopia objetiva unas formaciones semejantes, asentadas sobre la comisura anterior y vestíbulo laríngeo.

El estudio anatomopatológico de la biopsia demuestra tratarse de una papilomatosis, con ausencia de atipias celulares y perfecta ordenación de las células del epitelio escamoso (fig. 3).

Con este diagnóstico, se instaura un tratamiento con antibióticos y aspiraciones traqueobronquiales, recurriendo a la electrocoagulación endoscópica de los papilomas, ante la imposibilidad de otro tipo de actuación debido al estado general de la enferma y extensión del proceso. Tras reiteradas sesiones de electrocoagulación la enferma ha mejorado aunque no confiamos obtener una curación definitiva.



Fig. 3. Visión microscópica.

Discusión

A pesar de la rareza de presentación de papilomas en las vías aéreas, la papilomatosis traqueobronquial difusa constituye la forma más frecuente de este tipo de tumores, señalándose desde hace tiempo su asociación a papilomas laríngeos¹⁷.

Por el contrario las publicaciones sobre papilomas bronquiales aislados son muy escasas.

Los papilomas deben considerarse como neoplasias de naturaleza histológica benigna, aunque en casi todas las publicaciones se destaca la tendencia recidivante e invasora de la afección. Freant y Sawyer⁸, establecen de forma precisa las particularidades de los pólipos y papilomas. Los primeros son lesiones solitarias, constituidas por un estroma conjuntivo fibroso, bien configurado, con o sin infiltración celular inflamatoria, recubiertos por epitelio escamoso estratificado, o mucosa bronquial normal. Los segundos, pueden ser solitarios o múltiples, y son proliferaciones epiteliales con aspecto de coliflor, sostenidos por un delicado estroma conjuntivo relativamente avascular.

Mariani y cols.⁹, insisten en el aspecto macroscópico, describiendo que los papilomas presentan una superficie llena de papilas, mientras los pólipos tienen una superficie lisa o moderadamente lobulada. Microscópicamente señalan como princi-

pales particularidades distintivas del papiloma, la regularidad continua del revestimiento epitelial (sea de tipo pavimentoso, cilíndrico o mixto), la delimitación clara con el estroma subyacente y la ausencia de alteraciones inflamatorias.

La papilomatosis traqueobronquial se caracteriza por el desarrollo multicéntrico a nivel de la tráquea y de los bronquios gruesos o medianos de neoformaciones que tienden a extenderse a los territorios broncoalveolares continuos. Esta proliferación multicéntrica ha dado lugar a diversas teorías sobre su origen. Ullman¹⁰, en 1923 señala la etiología viral. Shope¹¹ demuestra que en el conejo los virus pueden producir cambios proliferativos que aboquen a la formación de papilomas. De Mombreux y Goodpasture¹², opinan que las lesiones producidas en el aparato respiratorio, son semejantes a las que se observan en la cavidad bucal de perros jóvenes infectados por virus. Strupler¹³ ha conseguido la aparición de tumores multicéntricos en animales mediante la inoculación de líquido libre de células obtenido por expresión de papilomas.

Según Syme¹ el carácter multicéntrico de los papilomas debe buscarse en la respuesta a los agentes tumorigénos actuando sobre una amplia área. Por el contrario Holding², lo atribuye a la implantación por vía aérea de lesiones situadas en el trac-



to respiratorio superior y al presentar en 1929 un caso de papilomas de laringe, tráquea y bronquios, concluye que las lesiones traqueobronquiales serían el resultado del transplante y la estimulación del crecimiento por la irritación crónica. Zamora³ y Hitz y Oesterlin¹⁴ creen que la extirpación de papilomas laríngeos puede producir la implantación secundaria por vía canalicular. En el caso presentado la primera manifestación clínica fue laringea, apareciendo con posterioridad la papilomatosis tráqueo-bronquial.

La papilomatosis produce la sintomatología de las estenosis traqueo-bronquiales. Detrás de la luz parcialmente bloqueada, aparecen infecciones recidivantes, por la retención de secreciones. Esto, junto a los procesos necróticos o degenerativos de los papilomas, con desprendimientos tumorales da lugar a atelectasias, bronquitis supurada, bronquiectasias, neumonitis crónicas, con episodios bronconeumónicos y formación de abscesos. En el caso anterior, la expulsión de papilomas por el traqueostoma se dio con frecuencia, existiendo un síndrome supurativo con bronquiectasias y abscesos pulmonares.

Las hemoptisis generalmente aparecen, cuando se erosionan partes del tumor, o de sus pedículos de implantación.

La histología tiene un patrón bien definido, aunque en ocasiones puede confundirse con una neoformación maligna, como en los casos presentados por Mooke y Lattes¹⁵. Para Liebow⁷ todavía no se ha demostrado con pruebas irrefutables la posibilidad de transformación maligna de los papilomas bronquiales, aunque no todos los autores opinan igual. Buffmire y cols.¹⁶ presentan en 1950 un caso de papilomatosis que des-

pués de 25 años de observación fue intervenido por un carcinoma papilar. Igualmente Aboulker y cols.¹⁷, resaltan la evolución maligna de un caso de papilomatosis difusa laringotraqueal.

Así pues, ante la coexistencia de un carcinoma, se abre el debate sobre la posible transformación maligna de un papiloma o la de tratarse de tumores primitivamente malignos de bajo potencial de crecimiento como ocurre en los tumores papilares del aparato urinario.

Desde el punto de vista terapéutico, en la papilomatosis difusa raramente esta indicada la cirugía. En los casos solitarios sin afectación parenquimatosa distal, las intervenciones de elección serán la ablación endoscópica y las resecciones parciales con reconstrucción ulterior. Sin embargo la afectación irreversible del territorio pulmonar obligará a practicar la exéresis. En estos casos trataremos de respetar al máximo el parénquima pulmonar sano, pues de todos es conocido el carácter recidivante de la afección.

Entre las otras terapéuticas hay que señalar la radioterapia, Blachman y Contril¹⁸ obtienen respuestas favorables a los 2.000 r, llegando en algunos casos hasta los 5.000 r. De todos modos como la sensibilidad es pequeña, la radioterapia sólo debe emplearse en casos seleccionados y localizados, dado el peligro de esclerosis pulmonar. Por su posible origen viral Hollinger y cols.¹⁹ aconsejan la aureomicina tras la electrocoagulación.

En el caso descrito, dada la extensión del proceso y el estado general de la enferma, nuestra actuación se ha limitado al tratamiento de la supuración, controlando los períodos de sobreinfección y la electrocoagulación

de los papilomas en sesiones repetidas; terapéutica con la que continua en la actualidad.

Resumen

Se presenta un caso de papilomatosis laringotraqueobronquial, describiendo su clínica así como las exploraciones practicadas. Los broncogramas evidenciaron una serie de fallos lacunares y en la endoscopia se descubrió la existencia de formaciones polipoideas en todo el árbol tráqueo-bronquial. El estudio histológico confirmó el diagnóstico de papilomatosis. Dada la extensión del proceso, se instauró una terapéutica sintomática y se practicaron traqueoscopias repetidas con electrocoagulación de papilomas.

Tras la exposición del caso clínico, se discuten los problemas nosológicos, etiológicos, anatomoclínicos y terapéuticos de esta afección.

Summary

BRONCHIAL-TRACHEAL-LARYNGEAL PAPILOMATOSIS

A case of bronchial-tracheal-laryngeal papillomatosis is presented, describing its clinical picture as well as the explorations carried out. The bronchograms indicated a series of lacunar failures and the existence of polypoid formations in all the tracheal-bronchial tree was discovered by endoscopy. The histological study confirmed the diagnosis of papillomatosis. Due to the extension of the process, symptomatic therapy was begun and repeated tracheoscopies were practised with electrocoagulation of the papillomas.

After the exposition of the clinical case, the nosological, etiological, anatomical and therapeutic problems of this affection are discussed.

BIBLIOGRAFIA

1. SYME, W.S.: Three bronchoscopic cases. *J. Laryng.*, 42: 751, 1927.
2. HOLDIN, A.F.: Papillomatosis of larynx and trachea. *New York State. J. Med.*, 29: 271, 1929.
3. ZAMORA, A.M.: Two benign growths removed by bronchoscopy. *J. Laryng. Otol.*, 46: 829, 1931.
4. JACKSON, C. y JACKSON, C.L.: Benign tumors of trachea bronchi with especial reference to tumorlike formations of inflammatory origin. *J.A.M.A.*, 99: 1.747, 1932.
5. PATTERSON, E.J.: Multiples papilloma of larynx trachea and left bronchus in child. *Ann. Otol. Rhin. Laryng.*, 48: 1080, 1939.
6. KIRCHNER, J.A.: Papilloma of larynx with extensive lung involvement. *Laryngoscope*, 61: 1022, 1951.
7. LIEBOW, A.A.: Tumors of the lower respiratory tract. Atlas of tumors Pathology. Sect.
5. Fasc. 17. 22. Armed Forces Institute of Pathology. Washington. 1952.
8. FREANT, L.J. y SAWYERS, S.L.: Benign bronchial polyps and papillomas. *Ann. Thorac. Surg.*, 11: 461, 1971.
9. MARIANI, B., BISETTI, A., VELLU'I, G., BROCHI, G. y PASTORELLI, S.: Papillomes et papillomatoses bronchiques. Contribution anatomoclinique. *Les Bronches*, 21: 327, 1971.
10. ULLMAN, E.V.: On the aetiology of the laryngeal papilloma. *Acta Otoralyn.*, 5: 317, 1923.
11. SHOPE, R.E.: Infections papillomatosis of rabbits. *J. Exp. Med.*, 58: 607, 1933.
12. DE MOMBREUX, W.A. y GOODPASTURE, E.W.: Monning's veterinary helminthology and entology. Pág. 279. Botterworts. Londres. 1962.
13. STRUPLER, W.: Papillomatosis tracheo-bronchialis. *Pract. Oto-Rhino-Laryng.*, 17: 391, 1955.
14. HITZ, H.B. y OESTERLING, P.: Case

of multiples papillomata of larynx with aerial metastases to lung. *Amer. Path.*, 8: 333, 1932.

15. MOOKE, R.L. y LATTES, P.: Papillomatosis of larynx and bronchi. Case report with 34 years follow up. *Cancer*, 12: 117, 1959.

16. BUFFMIRE, D.K., CLAGETT, O.T. y MC DONALD, D.: Papillomas of the larynx trachea and bronchi. Report of a case. *Mayo Clin. Proc.*, 25: 595, 1950.

17. ABOULKER, P., FOURESTIER, M., STERKERS, J.M., BOURDON, P., CHAMOUREL, J.L. y FOURNIER, A.: Evolution filmée d'un papillomatoses diffuse laryngotracheale à évolution maligne. Problème thérapeutique. *Ann. Oto-laryngol.*, 83: 96, 1966.

18. BLACKMAN, J. y CANTRIL, S.T.: Tracheobronchial papillomatosis treated by roentgen irradiation. Report of two cases. *Radiology*, 73: 598, 1959.

19. HOLLINGER, J.B., HOHLMOOS, H.W. y MC. NAUGHT, R.C.: Citado por Strupler, W. (13).