

proveniente de la aorta abdominal, y de forma diferida 2 meses después se realizó exéresis atípica del LII por minitoracotomía izquierda videoasistida, con liberación de la arteria del secuestro y vena pulmonar inferior. Los diagnósticos intraoperatorios fueron: SP intralobar derecho e izquierdo con cisura accesoria en lóbulo inferior izquierdo, irrigado por rama directa de la aorta. En la anatomía patológica se describió parénquima pulmonar tapizado por pleura visceral, con focos aislados de fibrosis pulmonar y bronquios dilatados, hallazgos compatibles con SP intralobar en lóbulo inferior izquierdo y lóbulo inferior derecho.

El SP es una malformación rara, generalmente el diagnóstico se realiza en edades tempranas de la vida, siendo el tratamiento de elección la segmentectomía a través de una toracotomía. La mayoría de los SP intralobares son unilaterales, siendo muy raros los bilaterales. La incidencia general del SP ronda entre 0,15-1,8%, la estadística exacta del SP bilateral aún no se ha determinado, aunque se sabe que es extremadamente raro<sup>1</sup>.

En el secuestro intralobar el aspecto radiológico suele ser variable: masa homogénea bien definida, lesión quística llena de aire o líquido, región hiperluciente e hipovascular o combinación de todos<sup>2</sup>. Pero también puede manifestarse, como en nuestro caso, de una forma inusual, y solo con una sutil área de opacidad tubular en el lóbulo inferior que puede representar los vasos sistémicos o el drenaje venoso asociado a la lesión<sup>3</sup>.

A lo largo de los años se han realizado varias revisiones de casos en los que se observan pocos secuestrados bilaterales, como la revisión que hicieron Wei Y y Li F en 2011, donde solo 3 de los 2.625 casos revisados eran bilaterales; 2 pacientes con ambos SP intralobares, como el nuestro<sup>4</sup>.

En cuanto al tratamiento se ha comparado la resección quirúrgica de la menor cantidad de parénquima pulmonar posible con la embolización angiográfica en recién nacidos, y se cree que el método más efectivo y seguro es la resección quirúrgica<sup>5</sup>. Aunque se han presentado casos en pacientes asintomáticos tratados con embolización de forma satisfactoria<sup>2</sup>.

Hay que destacar, que a pesar de que en la literatura revisada se describen muchas formas de presentación de SP, no debemos olvidarnos de las neumonías de lenta resolución que pueden enmascarar esta entidad y que, en nuestro caso, junto con la opacidad tubular nos orientó hacia el diagnóstico. Además, se desconoce exactamente cuántos casos de SP bilateral existen en España, y consideramos interesante en un futuro realizar más revisiones de casos con la finalidad de ampliar los conocimientos sobre el tema.

## Bibliografía

1. Seok JP, Kim YJ, Cho HM, Ryu HY. A rare case of bilateral pulmonary sequestration managed with embolization and surgical resection in a patient. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg.* 2013;46:475-7.
2. Webb WR, Higgins CB. Lesiones broncopulmonares congénitas. En: Webb WR, Higgins CB, editores. *Radiología pulmonar y cardiovascular.* Madrid: Marbán; 2009. p. 21-7.
3. Frazier AA, Rosado de Christenson ML, Stocker T, Templeton PA. Intralobar sequestration: Radiologic-pathologic correlation. *Radiographics.* 1997;17:737.
4. Wei Y, Li F. Pulmonary sequestration: A retrospective analysis of 2625 cases in China. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2011;40:e39-42.
5. Cho MJ, Kim DY, Kim KS, Kim EA, Lee BS. Embolization versus surgical resection of pulmonary sequestration: Clinical experiences with a thoracoscopic approach. *J Pediatr Surg.* 2012;47:2228-33.

Filomena Oliveri Aruete\*, Ariela Candelario Cáceres y Enrique Alonso Mallo

Servicio de Neumología, Hospital Río Carrión, Complejo Asistencial Universitario de Palencia, Palencia, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [Filomena.Oliveri@gmail.com](mailto:Filomena.Oliveri@gmail.com) (F. Oliveri Aruete).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2016.09.008>

0300-2896/

© 2016 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

## Enfermedad de Kikuchi-Fujimoto como diagnóstico diferencial de tuberculosis ganglionar. Reporte del primer caso de enfermedad de Kikuchi-Fujimoto en Perú



### *Kikuchi-Fujimoto Disease as a Differential Diagnosis for Lymph Nodotuberculosis. The First Case of Kikuchi-Fujimoto Disease in Peru*

Sr. Director:

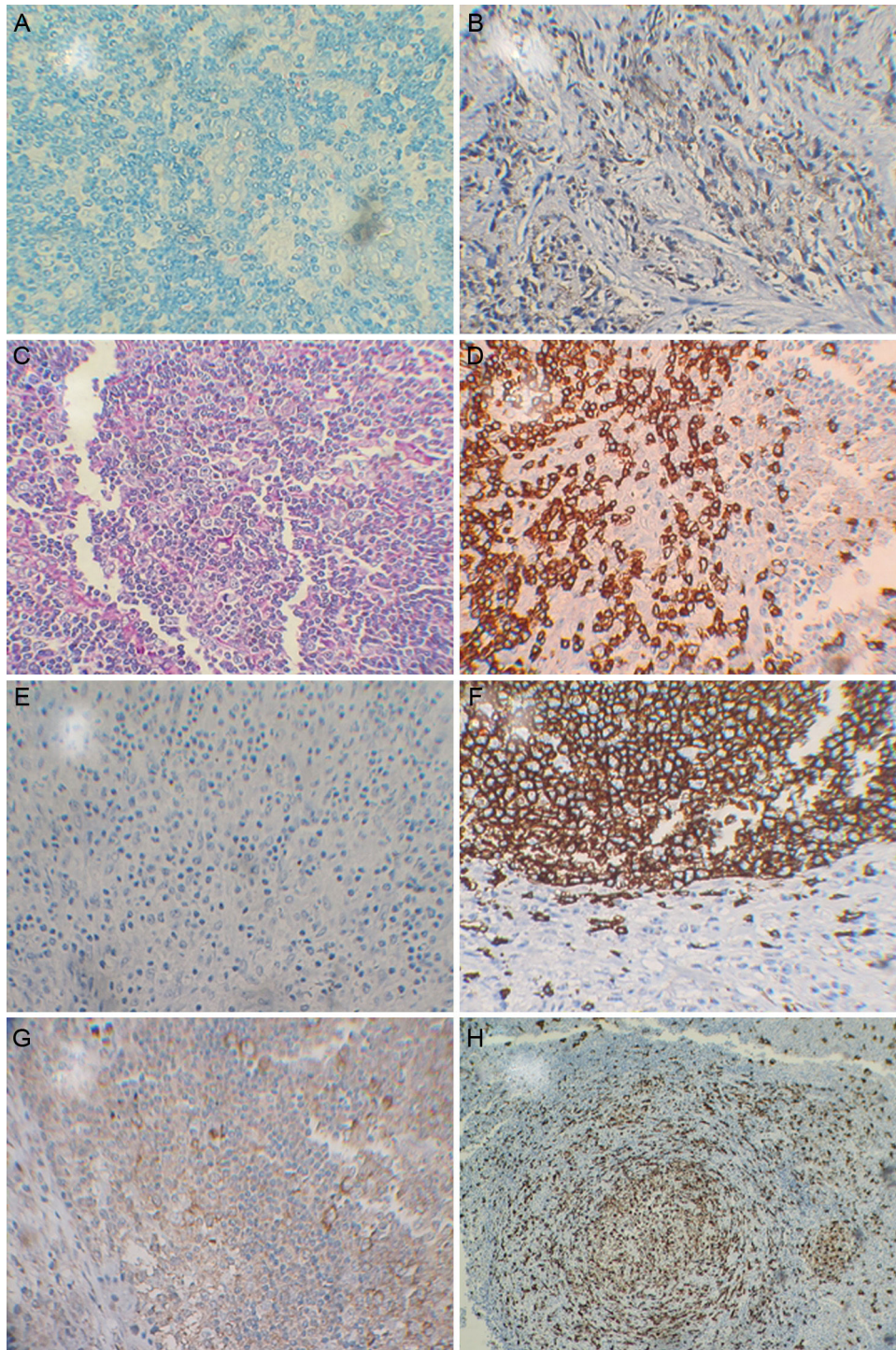
La tuberculosis (TBC) es una enfermedad de alta prevalencia en el Perú<sup>1</sup>. La afectación ganglionar, especialmente, representa un reto diagnóstico, pues suele ser difícil, y en ocasiones pueden darse tratamientos sin la certeza provista por la evidencia científica, dado que puede confundirse con la enfermedad de Kikuchi-Fujimoto (EKF).

Presentamos el caso de un paciente varón de 7 años natural de Lima, estudiante de 2.º grado de primaria que acude al servicio de neumología referido por pediatría evidenciando adenopatía axilar izquierda, sin datos previos que involucren síntomas respiratorios ni fiebre. Como antecedentes de importancia presenta vacunación completa según esquema de vacunación vigente de la OMS, que para Latinoamérica incluye bacilo Calmette-Guérin (BCG), sin historia de TBC previa, una probable exposición a TBC referida por la madre, quien afirma que 6 meses antes del cuadro acudió con el niño a un establecimiento penitenciario para visitar

a un pariente privado de su libertad. El pariente no presentaba diagnóstico de TBC, pero en Perú, por la alta prevalencia de esta enfermedad en la población carcelaria, se considera factor de riesgo de infección de TBC el acudir a estos establecimientos.

Al examen no se encontraron anomalías respiratorias, pero se evidenciaron adenopatías dolorosas de  $\pm 2$  cm en la región axilar izquierda. El resto del examen fue normal y no se encontraron anomalías en la analítica sanguínea. En los exámenes auxiliares la radiografía de tórax evidenció aumento de trama bronco vascular, sin lesiones patológicas, la ecografía confirmó el hallazgo de adenopatías axilares de 2,2 cm. Las pruebas de tuberculina (PPD) y baciloscopia para bacilos alcohol-ácido resistentes en esputo fueron negativas. Se le practicó una biopsia ganglionar, enviándose la muestra a estudio. No se realizaron cultivos de la biopsia para *Mycobacterium tuberculosis*. Ante el hallazgo en anatomía patológica que reportó linfadenitis crónica con tendencia granulomatosa se consideró TBC ganglionar como primera opción indicando el ingreso a programa de TBC para iniciar tratamiento. Sin embargo, como parte de un protocolo especial se realizó reacción en cadena de la polimerasa (PCR, por sus siglas en inglés de) para *Mycobacterium tuberculosis* con secuencia IS6110 en biopsia de ganglio, con resultado negativo, y se enviaron muestras para inmunohistoquímica con los siguientes resultados (fig. 1).

El paciente fue considerado un caso de EKF y no recibió tratamiento antituberculoso. El cuadro se resolvió a las 3 semanas de tratamiento sintomático.



**Figura 1.** A) BK negativo; B) PAS negativo; C) EBV negativo; D) CD3 positivo parcial; E) CD15 negativo; F) CD20 positivo parcial; G) CD30 positivo en linfocitos reactivos y H) CD68 positivo para histiocitos.

La linfadenitis cervical tuberculosa es la manifestación más común de TBC en cabeza y cuello en nuestro medio, representando aproximadamente el 15% de los casos de TBC extrapulmonar<sup>2</sup>. Tanto la linfadenitis tuberculosa como la EKF son entidades que forman parte del diagnóstico diferencial de las adenopatías necrosantes<sup>2-5</sup>. Esta última es una enfermedad rara, que consiste en una linfadenitis necrosante histiocitaria, generalmente autolimitada y de curso benigno, que afecta principalmente a sujetos jóvenes con predominio de las mujeres sobre los varones<sup>3</sup>. Aunque

se ha descrito principalmente en población asiática, se han reportado casos en casi todas las latitudes, y su forma de presentación habitual es con adenopatías cervicales (70-90%)<sup>5,6</sup>, generalmente unilaterales, acompañadas en algunos casos de fiebre, fatiga, sudoración nocturna, alteraciones gastrointestinales y cutáneas<sup>3,5,7,8</sup>. Los datos de laboratorio y de imágenes no son característicos, por lo que el diagnóstico suele ser difícil, requiriéndose para su correcta identificación una biopsia ganglionar, ya que las muestras de aspiración con aguja fina suelen ser poco contributivas<sup>5</sup>.

La patogénesis no ha sido aclarada hasta hoy, pero se postula que tanto el interferón como la interleucina-6 (IL-6) o la apoptosis celular podrían tener algún papel orientado siempre a etiologías virales<sup>5,9,10</sup> o autoinmunes<sup>9,11</sup>. Parece estar claro que la EKF es una reacción exagerada mediada por linfocitos T a una variedad de estímulos, en su mayoría infecciosos<sup>5,7,8,12</sup>. La evolución es habitualmente benigna, con resolución en pocos meses sin tratamiento específico, sin embargo existen casos con evolución más grave, pero son raros<sup>5,7,13</sup>.

Los hallazgos histológicos corresponden a 3 etapas de la enfermedad (proliferativa, necrosante y xantomatosa) las cuales representan cambios progresivos y evolutivos<sup>14</sup>. El inmunofenotipo típico de esta enfermedad consiste en una predominancia de células T con predominancia de CD8+ sobre CD4+. La inmunohistoquímica compatible muestra CD68 y CD3+, CD20+/- y CD30-. Los histiocitos expresan mieloperoxidasa y CD68 característico de esta enfermedad<sup>14</sup>.

La radiografía de tórax debería ser incluida en todos los pacientes para eliminar la posibilidad de otras causas como neoplasias o TBC. La tomografía espiral multicorte es especialmente útil para localizar la adenopatía más accesible para la biopsia y determinar la extensión de la enfermedad<sup>6</sup>.

En el Perú, por ser un país de altísima prevalencia de TBC, encontramos afectación ganglionar en buena parte de los casos. Como parte de los protocolos de diagnóstico se realizan los estudios de biopsias ganglionares, y se consideran factores epidemiológicos y otros hallazgos de laboratorio. Sin embargo, en ocasiones se indica tratamiento antituberculoso sin llegar a encontrar la evidencia científica concluyente y sin explorar las demás opciones etiológicas entre ellas este primer caso de EKF, por lo que consideramos importante incluir esta enfermedad dentro del diagnóstico diferencial de adenopatías, especialmente para la TBC ganglionar, debiéndose completar los estudios pertinentes. a fin de no prescribir tratamientos costosos, innecesarios y con riesgos significativos para los pacientes.

### Agradecimientos

Al equipo de profesionales del Hospital Nacional Arzobispo Loayza, y a los Dres. Alberto Yuen y Guillermo Ríos del Laboratorio de la Universidad Nacional Mayor de San Marcos, Lima, Perú por su apoyo invaluable.

### Actinomicosis sobre cuerpo extraño que simula una neoplasia pulmonar



### Actinomycosis Associated with Foreign Body Simulating Lung Cancer

Sr. Director:

La actinomicosis pulmonar es una infección pulmonar necrosante que se puede presentar tras la aspiración de un cuerpo extraño. Aproximadamente un 50% de los casos pueden simular un carcinoma pulmonar<sup>1</sup>.

Presentamos el caso de una mujer de 76 años diagnosticada de neumonía en lóbulo inferior derecho (LID) en septiembre de 2014, la cual se trató con azitromicina 500 mg/24 h, durante una semana. Tras completar el ciclo de antibiótico consultó por disnea que se acompañaba de tos con expectoración blanquecina maloliente y fiebre. Se realizó una TAC torácica (fig. 1A) donde se observó una condensación pulmonar heterogénea en el LID, sin evidencia de lesión central obstructiva. La paciente recibió un nuevo ciclo de

### Bibliografía

1. Norma técnica de salud para la atención integral de las personas afectadas por tuberculosis/Ministerio de Salud. Dirección General de Salud de las Personas. Estrategia Sanitaria Nacional de Prevención y Control de la Tuberculosis-Lima: Ministerio de Salud; 2013.
2. Maguñá C, Ferrufino J, Gutiérrez R, Delgado W. Enfermedad de Kikuchi-Fujimoto, tuberculosis ganglionar y tuberculide tuberculide. Comunicación de casos y revisión de literatura. Folia Dermatológica Peruana. 2002;13.
3. Scagni P, Peisino MG, Bianchi M, Morello M, Scardi N, Linari A, et al. Kikuchi-Fujimoto disease is a rare cause of lymphadenopathy and fever of unknown origin in children: Report of two cases and review of the literature. Am J Pediatr Hematol Oncol. 2005;27:337-40.
4. Valoyes L, García I, Muntané A, Mora P, Aja L. Tuberculosis ganglionar cervical simulando una enfermedad de Kikuchi: reporte de un caso y revisión de la literatura. Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello. 2014;74:145-50.
5. Baumgartner BJ, Helling ER. Kikuchi's disease: A case report and review of the literature. Ear Nose Throat J. 2002;81:331-5.
6. Ramos M, Jiménez L, Olaiz B. Enfermedad de Kikuchi-Fujimoto: una localización atípica. Arch Bronconeumol. 2009;45:359-60.
7. Jiménez Sáenz JM, Llorente Arenas EM, Fuentes Solsona F, de Miguel García F, Alvarez Alegret R. Kikuchi-Fujimoto's disease and the association with systemic lupus erythematosus [Article in Spanish]. An Med Interna. 2001;18:429-31.
8. López C, Oliver M, Olavarría R, Sarabia MA, Chopite M. Kikuchi-Fujimoto necrotizing lymphadenitis associated with cutaneous lupus erythematosus: a case report. Am J Clin Dermatol. 2000;22:328-33.
9. Wang TJ, Yang YS, Lin YT, Chiang BL. Kikuchi-Fujimoto disease in children: Clinical features and disease course. J Microbiol Immunol Infect. 2004;37:219-24.
10. Hoffmann A, Kirm E, Kuerten A, Sander C, Krueger GR, Ablashi DV. Active Human herpesvirus 6 (HHV-6) infection associated with Kikuchi-Fujimoto disease and systemic lupus erythematosus. In vivo. 1991;5:265-9.
11. Kubota M, Tsukamoto R, Kurokawa K, Imai T, Furusho K. Elevated serum interferon gamma and interleukin-6 in patients with necrotizing lymphadenitis. Br J Hematol. 1996;95:613-5.
12. Bosch X, Guilabert A, Miquel R, Campo E. Enigmatic Kikuchi-Fujimoto disease: A comprehensive review. Am J Clin Pathol. 2004;122:141-52.
13. Sato Y, Kuno H, Oizumi K. Histiocytic necrotizing lymphadenitis (Kikuchi's disease with aseptic meningitis). J Neurol Sci. 1999;163:187-91.
14. Herrero A, Pérez L, Sota P. Enfermedad de Kikuchi-Fujimoto. ORL Aragon. 2010;13:30-2.

Jorge Nelson Chung Ching

Hospital Nacional Arzobispo Loayza, Lima, Perú

Correo electrónico: [jorgechung14@gmail.com](mailto:jorgechung14@gmail.com)

<http://dx.doi.org/10.1016/j.arbres.2016.09.007>

0300-2896/

© 2016 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

antibiótico con amoxicilina/ácido clavulánico (1.000/200 mg) durante 14 días.

En septiembre de 2015 presentó un cuadro de hemoptisis y se realizó una fibrobroncoscopia donde se observó un «tapón de fibrina en un subsegmento medial del LID». Se realizó una angiografía bronquial, donde se observó una lesión hipervascolarizada a la altura del hilio derecho, que recibía irrigación de una arteria bronquial derecha dependiente de un tronco intercostal. Se completó el estudio con una PET/TC donde se observó lesión en LID con un SUV (valor estandarizado de captación) máximo de 4. Se decidió realizar tratamiento quirúrgico por la elevada sospecha de malignidad, y por el episodio de hemoptisis. Dada la localización de la lesión se realizó una lobectomía inferior derecha por toracotomía.

El informe anatomopatológico describió una inflamación mixta aguda y crónica, focalmente abscesificante, asociada a cuerpo extraño (espina de pescado) con sobreinfección por *Actinomyces*, fibrosis y cambios reactivos perilesionales (fig. 1B).

La actinomicosis es una infección crónica supurativa causada por un grupo de bacterias anaerobias que se encuentran de forma