

ringoscopia mostró parálisis de cuerdas vocales (CV) en aducción, con masas blanquecinas en las mismas y en aritenoides compatibles con tofos (fig. 1 C), precisando traqueostomía urgente. La fibrobroncoscopia mostró lesiones excrecentes en BPI, blanquecinas, similares a las laríngeas (fig. 1 D). Las biopsias bronquiales mostraron material fibrinohemorrágico con aislada celularidad epitelial atípica y fragmentos de pared bronquial sin alteraciones morfológicas significativas. Las biopsias laríngeas mostraron mucosa con epitelio escamoso, sin alteraciones y ausencia de malignidad. En la analítica destacaba ácido úrico de 12 mg/dl. Tras oxigenoterapia, broncodilatadores y antibióticos fue dado de alta con traqueostomía permanente. Durante su estancia se realizó una poligrafía respiratoria con traqueostomía abierta que mostró episodios de hipoventilación profunda y un IAH de 8,5/h⁻¹. Se inició tratamiento con ventilación mecánica invasiva hospitalaria y domiciliaria nocturna a través de traqueostomía (VIVO 50 VA/C: Vt 1.000 ml, Fr 12 rpm, EPAP 6 cm H₂O, Ti 1.5 s., trigger inspiratorio 3 y patrón de flujo descendente), con buen cumplimiento. Un año más tarde el paciente ingresó por hemoptisis, mostrando en la TAC tejido de densidad de partes blandas alrededor de BPI, salida del intermediario y bronquio del LSI. La fibrobroncoscopia mostró, además de las lesiones referidas en BPI, estenosis prácticamente completa del bronquio lingular y parcial del culmen con mucosa necrótica, revelando las biopsias la presencia de un carcinoma epidermoide bien diferenciado.

La afectación de tejidos de cabeza y cuello en la GTC es excepcional, y más aún la parálisis de CV secundaria a artritis gotosa aguda. Igualmente la afectación bronquial solo se ha descrito en una ocasión³. Por afectación laríngea no existen más de 20 casos publicados y ninguno en la literatura española⁴. Aunque existen pocos estudios que aborden la afectación laríngea en la gota, que más comúnmente afecta a la articulación cricoidoidea y raramente produce parálisis de CV, ya Garrod en 1863 describió unas «motas» de urato sódico en el cartílago aritenoides de la necropsia de un hombre con GTC⁵. Años más tarde Virchow reportó la presencia de urato monosódico en la CV de un paciente con extensos depósitos tofáceos⁶. La parálisis de CV es una causa potencial de IRA, excepcionalmente secundaria a artritis aguda². Como en nuestro caso, la parálisis de CV se produce por atrofia y denervación de algunos músculos laríngeos implicados en la articulación cricoaritenoidoidea, más que por depósito directo de tofos, provocando fibrosis e inflamación sobre el tejido

perineuronal, que finalmente atrofia las fibras musculares inervadas e hipertrofia las sanas^{7,8}. Nuestro paciente presentó además tofos endobronquiales, aunque finalmente desarrolló un carcinoma epidermoide. Evidentemente, no puede establecerse una relación causa-efecto entre la gota y el carcinoma debido a su hábito tabáquico. El diagnóstico de gota cricoaritenoidoidea puede ser establecido por los síntomas y signos que presenten pacientes con extensa GTC, como disfagia, disfonía, disnea, etc.². La afectación laríngea por gota debe ser considerada ante una historia de hiperuricemia y artritis gotosa aguda o crónica que presenta ronquidos, odinofagia, disfagia, estridor, disnea y/o disfonía. A veces se produce un compromiso agudo de la VAS que requiere traqueostomía urgente, e incluso pueden presentar lesiones bronquiales³.

Bibliografía

1. Perez-Ruiz F, Marimon E, Chinchilla S. Hyperuricaemia with deposition: Lastest evidence and therapeutic approach. *Ther Adv Musculoskel Dis.* 2015;7:225-33.
2. Goodman M, Montgomery W, Minette L. Pathologic findings in gouty cricoarytenoid arthritis. *Arch Otolaryngol.* 1976;102:27-9.
3. Adamson R, Matthew Lacy J, Cheng AM, Park DR. Tophus causing bronchial obstruction. *Am J Respir Crit Care Med.* 2013;188:72-3.
4. Tsikoudas A, Coatesworth AP, Martin-Hirsch DP. Laryngeal gout. *J Laryngol Otol.* 2002;116:140-2.
5. Garrod AB. Chapter XIV. En: Garrod AB, editor. *The nature and treatment of gout and rheumatic gout.* Londres: Walton and Mabely; 1859. p. 496-525.
6. Virchow R. Seltene gichtablagerungen. *Virchow's Archiv.* 1868;44:137.
7. Gacek RR, Gacek MR, Montgomery WW. Evidence for laryngeal paralysis in cricoarytenoid joint arthritis. *Laryngoscope.* 1999;109 Pt 1:279-83.
8. Lefkowitz AM. Gouty involvement of the larynx. Report of a case and review of the literature. *Arthritis Rheum.* 1965;8:1019-26.

Mar Arlandis, Virginia Molina, Sandra Vañes y Eusebi Chiner*

Servicio de Neumología, Hospital Universitari Sant Joan d'Alacant, Alicante, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: echinervives@gmail.com (E. Chiner).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2017.12.003>

0300-2896/

© 2017 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Linfoma pleural asociado a empiema crónico



Pleural Lymphoma Associated With Chronic Empyema

Estimado Director:

Presentamos el caso de un varón de 78 años, exfumador, con antecedentes de tuberculosis pulmonar tratada con neumotórax terapéutico izquierdo y empiema crónico izquierdo recidivante, que presenta empeoramiento de su situación general en los últimos meses con disnea, pérdida de peso, astenia, sequedad cutánea generalizada, síntomas de insuficiencia cardíaca derecha e insuficiencia respiratoria hipercápnica crónica.

Analíticamente destacaba anemia y discreta alteración de las enzimas hepáticas. La radiografía de tórax mostraba un incremento importante del derrame pleural izquierdo previo con desplazamiento mediastínico, por lo que se le realizó una toracocentesis, obteniendo un líquido pleural de aspecto turbio compatible con un exudado de predominio polinuclear con glucosa baja, proteínas, LDH y ADA elevados, CEA normal. La citología fue negativa

para células malignas y en el cultivo no se evidenció crecimiento de bacterias ni micobacterias.

Ante la escasa mejoría clínica tras la evacuación de líquido pleural junto con los datos sugestivos de insuficiencia cardíaca derecha se realizó ecocardiografía transtorácica, objetivando una masa hipocogénica en la pared inferolateral del ventrículo izquierdo, con dilatación de la aurícula izquierda, ligero derrame pericárdico, FEVI conservada y vena cava inferior dilatada sin colapso inspiratorio. Se realizó TC toracoabdominal, apreciándose una masa de partes blandas en la pared medial y caudal del hemitórax izquierdo, de 6 × 3 cm, con infiltración pericárdica, efecto masa y pequeño derrame pericárdico asociado. Comparativamente con estudios previos se evidenció un importante incremento de la colección pleural conocida, que se encontraba ocupando la práctica totalidad del hemitórax, produciendo atelectasia compresiva del pulmón con desviación mediastínica contralateral y compresión cardíaca (fig. 1).

Se biopsió la masa de forma guiada por TC con resultado anatómopatológico compatible con linfoma no Hodgkin B difuso de células grandes, con nivel de proliferación del 70%, sin positividad



Figura 1. TC de tórax con contraste, corte axial (izquierda) y coronales (centro y derecha): masa pleural en pared medial y caudal de hemitórax izquierdo con infiltración pericárdica (flechas continuas) y gran colección en hemitórax izquierdo correspondiente con pnotórax crónico (flechas discontinuas), produciendo en su conjunto desplazamiento mediastínico contralateral y compresión cardíaca.

para virus de Epstein Barr (VEB) ni para c-myc y sin infiltración de la médula ósea. Las serologías para VIH, VHB, VHC y CMV resultaron negativas. El paciente presentó un empeoramiento clínico acelerado en pocas semanas, que condicionó su derivación para tratamiento y seguimiento por cuidados paliativos, falleciendo a los 2 meses del diagnóstico.

El linfoma pleural primario es una entidad poco frecuente (aproximadamente 7% de los linfomas). Usualmente afecta a pacientes con VIH o pnotórax crónico (PC), siendo excepcional en pacientes inmunocompetentes¹. Aunque la ratio de PC es similar en ambos sexos, los hombres son más susceptibles al desarrollo de linfomas no Hodgkin (LNH) que las mujeres (ratio 5,2:1).

La estimulación inflamatoria de larga duración se ha señalado como un factor etiológico importante para el desarrollo de linfomas malignos, describiéndose periodos de tiempo desde el inicio del PC hasta el desarrollo de LNH mayores (>20 años) que en pacientes con enfermedades autoinmunes o trasplantados renales (9,5 y 4 años, respectivamente). De hecho, tras los resultados de su estudio, Aozasa et al. distinguieron y acuñaron una entidad clínico-patológica característica denominada el «linfoma asociado a pnotórax (PAL)». Esta entidad viene definida como un LNH-B desarrollado en la cavidad pleural de pacientes con PC de más de 20 años de evolución, en el que se ha apreciado además un perfil molecular exclusivo, la sobreexpresión de proteína 27 interferón-inducible, que juega un papel en la inflamación crónica². El VEB infecta de forma latente el PAL con expresión tipo III de proteínas relacionadas con el VEB en las células tumorales³, hecho que no se evidenció en nuestro paciente.

Aunque el síntoma más frecuente es el dolor torácico, también puede aparecer disnea si se acompaña de derrame pleural significativo, como ocurrió en el presente caso. Radiológicamente se presenta como un engrosamiento pleural nodular difuso, acompañado de masa pleural. La existencia de una masa de tejido blando pleural adyacente al margen de una cavidad de empiema coexistente sugiere la presencia de linfoma asociado a pnotórax⁴. En otras ocasiones puede aparecer derrame pleural aislado previo al desarrollo de la masa pleural⁵. El conocimiento de los hallazgos radiológicos típicos y la ubicación ayuda en el diagnóstico de esta rara entidad patológica⁴. En consonancia con la literatura, nuestro paciente precisó en los meses previos toracocentesis evacuadoras de repetición por empiema recidivante, objetivándose posteriormente la masa pleural. En el presente caso, de forma inusual, la

masa pleural se halló localizada en la pared medial y caudal del hemitórax izquierdo, extendiéndose al pericardio².

Para el diagnóstico se recomienda realizar una biopsia pleural guiada por ecografía o TC, o mediante videotoroscopia⁵. Histológicamente, todos los casos de PAL son LNH, siendo el LNH-B difuso de células grandes el más común⁵, como en nuestro caso. El tratamiento quirúrgico agresivo con pleurectomía presenta excelente eficacia en estadios precoces, estando al alcance, por tanto, de un número muy limitado de pacientes³. Se requiere quimioterapia sistémica basada en combinaciones CHOP, con eficacia variable. La radioterapia es efectiva para el control local, primario o de rescate tras quimioterapia. El pronóstico es pobre, con una supervivencia a 5 años del 20-30%³. Aunque se trata de un problema infrecuente, se debe tener en cuenta el diagnóstico de linfoma pleural en el seguimiento a largo plazo de pacientes con infección pleural crónica con el objetivo de evitar el retraso terapéutico.

Bibliografía

1. Luchi K, Aozasa K, Yamamoto S, Mori T, Tajima K, Minato K, et al. Lymphoma of the pleural cavity developing from long-standing pyothorax. summary of clinical and pathological findings in thirty-seven cases. *Jpn J Clin Oncol*. 1989;19:249-57.
2. Devouassoux G, Lantouejoul S, Pison C, Capron F, Brichon P-Y, Brambilla C, et al. Chest pains complicating an artificial therapeutic pneumothorax. *Eur Respir J*. 1997;10:2659-61.
3. En: Sasai K, Oguchi M, editors. Radiation therapy for extranodal lymphomas, 5. Japan: Springer; 2017. p. 45.
4. Ueda T, Andreas C, Itami J, Miyakawa K, Fujimoto H, Ito H, et al. Pyothorax-associated lymphoma: Imaging findings *AJR*. 2010;194:76-84.
5. Aozasa K. Pyothorax-associated lymphoma. *J Clin Exp Hematopathol*. 2006;46:5-10.

Ana Cerezo-Hernández*, María Victoria García-Gallardo Sanz, Carmen Ainhoa Arroyo Domingo y Félix del Campo Matías

Servicio de Neumología, Hospital Universitario Río Hortega, Valladolid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: anacerezo.barqueros@gmail.com (A. Cerezo-Hernández).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2017.12.014>
0300-2896/

© 2018 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.