

13. De Jong WK, Kluin PM, Groen HM. Overlapping immunoglobulin G4-related disease and Rosai-Dorfman disease mimicking lung cancer. *Eur Respir Rev.* 2012;21:365–7.
14. Houshmand S, Salavati A, Segtnan EA, Grupe P, Høilund-Carlsen PF, Alavi A. Dual-time-point imaging and delayed-time-point fluorodeoxyglucose-PET/computed tomography imaging in various clinical settings. *PET Clin.* 2016;11:65–84.
15. Baltaxe E, Shulimzon T, Lieberman S, Rozenman J, Perelman M, Segel MJ. Enfermedad pulmonar relacionada con IgG4. Tres casos no tratados con resultado benigno. *Arch Bronconeumol.* 2016;52:e1–3.

María Teresa Gómez Hernández*, Israel Rodríguez Alvarado, Nuria Novoa y Marcelo F. Jiménez López

Departamento de Cirugía Torácica, Hospital Universitario de Salamanca, Salamanca, España

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: mteresa.gomez.hernandez@gmail.com
(M.T. Gómez Hernández).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2018.07.024>
0300-2896/

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

Resección quirúrgica de papilomatosis glandular endobronquial



Surgical Resection of Endobronchial Glandular Papilloma

Estimado Director:

Los papilomas de tracto respiratorio son neoplasias epiteliales poco frecuentes. La forma de presentación más habitual afecta a niños y a adultos jóvenes en forma de lesiones múltiples localizadas en la vía aérea superior, generalmente la laringe, en ocasiones extendidas al tracto respiratorio inferior. Este tipo de papilomatosis suelen tratarse de papilomas escamosos y se asocian a infección por el virus del papiloma humano (VPH)¹. La papilomatosis endobronquial aislada es poco frecuente, especialmente la variante glandular². Describimos el caso de una paciente adulta con papilomatosis endobronquial glandular limitada al tracto respiratorio inferior, reseca mediante lobectomía inferior derecha videotoracoscópica.

Se trataba de una paciente de 53 años, nunca fumadora, con antecedente de cáncer de mama ductal infiltrante intervenido mediante cuadrantectomía 10 años antes y tratado con quimioterapia y radioterapia. Se inició el estudio por un cuadro de infección respiratoria con tos productiva asociado a sibilancias, disnea de esfuerzo y dolor torácico opresivo. En la TAC torácica se descubrió un nódulo pulmonar polilobulado en el lóbulo inferior derecho parahiliar de 2,1 cm que mostraba una actividad metabólica débil-moderada en la tomografía por emisión de positrones (PET-TC) (SUVmax: 2,68) (fig. 1). El estudio analítico fue normal, así como el estudio de función respiratoria. En la broncoscopia se apreció una tumoración exofítica rosada, vascularizada, de consistencia blanda con zonas de aspecto necrótico que ocluía la práctica totalidad del bronquio de la pirámide basal, y que parecía proceder de un bronquio accesorio en su pared posterior.

La biopsia incisional realizada no fue diagnóstica, informando de infiltrado inflamatorio de predominio plasmocitario. El caso fue presentado al Comité Multidisciplinar, y ante la falta de diagnóstico y la imposibilidad de realizar una resección completa por endoscopia se decidió tratamiento quirúrgico. Dada la localización se realizó una lobectomía inferior derecha por videotoracoscopia. El curso postoperatorio fue favorable y fue dada de alta a los 4 días.

El diagnóstico final fue de papilomatosis endobronquial glandular, describiéndose tres lesiones papilares, la más grande de 2,5 × 1,6 cm junto a dos lesiones milimétricas, una de ellas en continuidad con la de mayor tamaño. Las lesiones se extendían desde el bronquio lobar alcanzando a los bronquiolos. Los cambios histológicos consistían en proliferaciones papilomatosas con un revestimiento epitelial de tipo respiratorio, hiperplasia de células mucosecretoras, metaplasia escamosa y células cúbicas. En el

estroma destacaba la presencia de un infiltrado linfoplasmocitario e histiocitos espumosos. No se detectó atipicidad celular y las mitosis eran escasas.

La paciente ha seguido revisiones periódicas, realizándose TAC y broncoscopia de control sin signos de recidiva tras 18 meses.

Los papilomas de tracto respiratorio consisten en neoplasias epiteliales poco frecuentes que pueden clasificarse de acuerdo con el número de lesiones, localización e histología². En cuanto al número, puede tratarse de formas múltiples que afectan habitualmente el tracto respiratorio superior, si bien pueden afectar a cualquier punto de la vía respiratoria, extendiéndose al tracto respiratorio inferior hasta en un 30% de casos³. Tienen tendencia a recaer, de ahí el nombre de papilomatosis recidivante respiratoria⁴. Esta forma es más frecuente en niños y jóvenes, aunque se ha descrito una forma adulta de características similares⁵. Se considera causada por el VPH, fundamentalmente los serotipos VPH-6 y VPH-11. El tratamiento se basa en la resección de las lesiones generalmente con láser, combinado con antivirales⁶.

La forma aislada es menos frecuente, aunque su incidencia real es desconocida. Es la forma de presentación más habitual en el adulto, generalmente en la quinta o sexta década de vida, con una mayor incidencia en varones⁷. Suele presentarse como un nódulo polipoideo localizado en la tráquea, el bronquio lobar o segmentario. En función de su localización podemos diferenciar entre papilomas centrales o periféricos, lo que influirá además en la forma de presentación clínica. El síntoma más habitual de los papilomas endobronquiales será la tos, pudiendo llegar a producir atelectasias e infecciones postobstructivas. Otros posibles síntomas son fiebre, hemoptisis o disnea. Los papilomas periféricos suelen ser asintomáticos y se descubren de forma incidental².

En cuanto a la histología, se han descrito 3 formas: escamoso, glandular o mixto. La variante escamosa es la más frecuente, y se considera causada por el VPH⁸. Este tipo se ha asociado a un potencial riesgo de malignización, que oscila entre el 8 y el 40% según las series⁹. Este riesgo aumenta con la exposición al tabaco¹⁰; así mismo, los serotipos VPH-16 y VPH-18 se asocian a mayor riesgo de transformación maligna^{11,12}.

La variante glandular es menos frecuente. En la mayor serie publicada en la literatura, Tryfon et al.¹¹ describen 32 casos de papilomas de vía aérea inferior, de los que sólo 6 eran de tipo glandular. En este artículo se incluye además una revisión de casos publicados, y de un total de 69 casos, sólo 14 eran de tipo glandular. En general se considera que afecta a pacientes de mayor edad, sin asociación al hábito tabáquico, y suele tener una localización periférica. No se ha descrito ninguna transformación maligna del papiloma glandular¹³.

El diagnóstico diferencial anatomopatológico puede resultar en ocasiones complicado a la hora de diferenciar entre los cambios secundarios que pueden aparecer en estas lesiones con respecto a una posible transformación maligna, con una falsa impresión

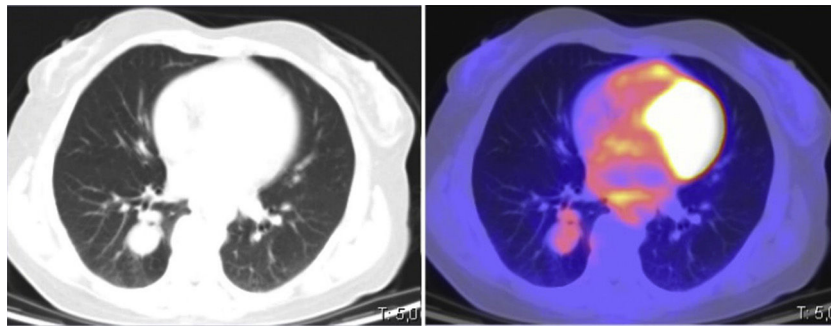


Figura 1. Tomografía por emisión de positrones-tomografía computarizada (PET-TC). Lesión polilobulada localizada en el lóbulo inferior derecho con captación leve (SUVmax: 2,68).

de microinvasión intersticial o cambios focales sugerentes de adenocarcinoma con patrón lepidico en casos de papiloma glandular o mixto^{14,15}.

El tratamiento consiste en su resección; el método de elección dependerá del tamaño, de la localización y del diagnóstico preoperatorio. Las lesiones endobronquiales pequeñas pueden ser tratadas endoscópicamente, mientras que las de mayor tamaño o periféricas requerirán resección quirúrgica. En la mayoría de los casos publicados el tratamiento fue quirúrgico, incluyendo resecciones subsegmentarias, lobectomías e incluso neumonectomías^{11,15}.

En nuestro caso no se pudo llegar a un diagnóstico preoperatorio. Dada la localización y su amplia base de implantación se decidió la resección quirúrgica, con un diagnóstico final de papilomatosis endobronquial glandular.

En resumen, los papilomas endobronquiales son lesiones que, a pesar de su baja incidencia, han de ser tenidas en cuenta en el diagnóstico diferencial de los nódulos pulmonares en el adulto. Su variante glandular es la menos frecuente, se considera de buen pronóstico y tiene excelentes resultados tras la resección quirúrgica.

Bibliografía

1. Carifi M, Napolitano D, Morandi M, dall'Olio D. Recurrent respiratory papillomatosis: Current and future perspectives. *Ther Clin Risk Manag.* 2015;11:731–8.
2. Kaseda K, Horio H, Harada M, Hishima T. Solitary glandular papilloma of the peripheral lung: A report of two cases. *World J Surg Oncol.* 2014;12:149.
3. Ivancic R, Iqbal H, deSilva B, Pan Q, Matrk L. Current and future management of recurrent respiratory papillomatosis. *Laryngoscope Investig Otolaryngol.* 2018;3:22–34.
4. Gélinas JF, Manoukian J, Côté A. Lung involvement in juvenile onset recurrent respiratory papillomatosis: A systematic review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2008;72:433–52.
5. Talierno S, Cespedes M, Born H, Ruiz R, Roof S, Amin MR, et al. Adult-onset recurrent respiratory papillomatosis: A review of disease pathogenesis and implications for patient counseling. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2015;141:78–83.
6. Wierzbicka M, Jackowska J, Bartochowska A, Józefiak A, Szyfter W, Kędzia W. Effectiveness of cidofovir intralesional treatment in recurrent respiratory papillomatosis. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2011;268:1305–11.
7. Flieder DB, Koss MN, Nicholson A, Sesterhenn IA, Petras RE, Travis WD. Solitary pulmonary papillomas in adults: A clinicopathologic and in situ hybridization study of 14 cases combined with 27 cases in the literature. *Am J Surg Pathol.* 1998;22:1328–42.
8. Syrjänen K, Syrjänen S. Solitary bronchial squamous cell papilloma – another human papillomavirus (HPV)-associated benign tumor: Systematic review and meta-analysis. *Contemp Oncol (Pozn).* 2013;17:427–34.
9. Inoue Y, Oka M, Ishii H, Kimino K, Kishikawa M, Ito M, et al. A solitary bronchial papilloma with malignant changes. *Intern Med.* 2001;40:56–60.
10. Roviaro GC, Varoli F, Pagnini CA. Is the solitary papilloma of the bronchus always a benign tumor? *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec.* 1981;43:301–8.
11. Tryfon S, Dramba V, Zoglopitis F, Iakovidis D, Sakkas L, Kontakiotis T, et al. Solitary papillomas of the lower airways: Epidemiological, clinical, and therapeutic data during a 22-year period and review of the literature. *J Thorac Oncol.* 2012;7:643–8.
12. Khoury R, Sauter S, Butsch Kovacic M, Nelson AS, Myers KC, Mehta PA, et al. Risk of human papillomavirus infection in cancer-prone individuals: What we know. *Viruses.* 2018;10:47.
13. Tanaka R, Emerson LL, Karwande SV, Schreiber G. Growing pulmonary nodule with increased 18-fluorodeoxyglucose uptake in a former smoker. *Chest.* 2005;127:1848–51.
14. Feng AN, Wu HY, Zhou Q, Sun Q, Fan XS, Zhang YF, et al. Solitary endobronchial papillomas with false impression of malignant transformation: Report of two cases and review of the literature. *Int J Clin Exp Pathol.* 2015;8:8607–12.
15. Yabuki K, Matsuyama A, Obara K, Takenaka M, Tanaka F, Nakatani Y, et al. A unique case of a huge mixed squamous cell and glandular papilloma of non-endobronchial origin with a peripheral growth. *Respir Med Case Rep.* 2018;24:108–12.

Clara Isabel Bayarri Lara *, María José Moyano Rodríguez,
Julio Ricardo Torres Bermúdez y Francisco Javier Ruiz Zafrá

Servicio de Cirugía Torácica, Hospital Universitario Virgen de las Nieves, Granada, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ci.bayarri@gmail.com (C.I. Bayarri Lara).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2018.08.007>

0300-2896/

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