

tomográfico específico y personalizado destinado a la detección de neoplasias pulmonares en estadios precoces en esta población seleccionada.

### Agradecimientos

Ante la imposibilidad de autoría de todos los miembros, nos gustaría expresar nuestro agradecimiento, y que así constase por escrito en la publicación, a todos los miembros asistentes del Comité de Oncología Torácica del Hospital Clínico Universitario de Valladolid y del Comité de Enfermedades Intersticiales del Hospital Clínico Universitario de Valladolid.

### Bibliografía

1. American Thoracic Society, European Respiratory Society American Thoracic Society. Idiopathic pulmonary fibrosis: diagnosis and treatment. International consensus statement. American Thoracic Society (ATS) and the European Respiratory Society (ERS). *Am J Respir Crit Care Med.* 2000;161:646-64.
2. Diagnosis of Idiopathic Pulmonary Fibrosis An Official ATS/ERS/JRS/ALAT Clinical Practice Guideline. *Am J Respir Crit Care Med.* 2018;198:e44-68.
3. Ozawa Y, Suda T, Naito T, Enomoto N, Hashimoto D, Fujisawa T, et al. Cumulative incidence of and predictive factors for lung cancer in IPF. *Respirology.* 2009;14:723-8.
4. Tomassetti S, Gurioli C, Ryu JH, Decker PA, Ravaglia C, Tantalocco P, et al. The Impact of Lung Cancer on Survival of Idiopathic Pulmonary Fibrosis. *Chest.* 2015;147:157-64.
5. Huddad R, Massaro D. Idiopathic diffuse interstitial pulmonary fibrosis (fibrosing alveolitis), atypical epithelial proliferation and lung cancer. *Am J Med.* 1968;45:211-9.
6. Le Jeune I, Gribbin J, West J, Smith C, Cullinan P, Hubbard R. The incidence of cancer in patients with idiopathic pulmonary fibrosis and sarcoidosis in the UK. *Respir Med.* 2007;101:2534-40.
7. Hubbard R, Venn A, Lewis S, Britton J. Lung cancer and cryptogenic fibrosing alveolitis: a population-based cohort study. *Am J Respir Crit Care Med.* 2000;161:5-8.
8. Lee T, Park JY, Lee HY, Cho YJ, Yoon HI, Lee JH, et al. Lung cancer in patients with idiopathic pulmonary fibrosis: Clinical characteristics and impact on survival. *Respir Med.* 2014;108:1549-55.
9. Kwak N, Park CM, Lee J, Park YS, Lee SM, Yim JJ, et al. Lung cancer risk among patients with combined pulmonary fibrosis and emphysema. *Respir Med.* 2014;108:524-30.

10. Raghu G, Collard HR, Egan JJ, Martinez FJ, Behr J, Brown KK, et al. ATS/ERS/JRS/ALAT Committee on Idiopathic Pulmonary Fibrosis. An official ATS/ERS/JRS/ALAT statement: Idiopathic pulmonary fibrosis: evidence-based guidelines for diagnosis and management. *Am J Respir Crit Care Med.* 2011;183:788-824.
11. Kim DS, Park JH, Park BK, Lee JS, Hicholson AG, Colby T. Acute exacerbation of idiopathic pulmonary fibrosis: Frequency and clinical features. *Eur Respir J.* 2006;27:143-50.
12. Fujimoto T, Okazaki T, Matsukura T, Hanawa T, Yamashita N, Nishimura K, et al. Operation for lung cancer in patients with idiopathic pulmonary fibrosis: Surgical contraindication? *Ann Thorac Surg.* 2003;76:1674-8.

Blanca de Vega Sánchez<sup>a,f,\*</sup>, Carlos Disdier Vicente<sup>a,g</sup>,  
Vicente Roig Figueroa<sup>a</sup>, Rafael Lopez Castro<sup>b</sup>,  
Jose Maria Matilla<sup>c</sup>, María Rosa Lopez Pedreira<sup>d</sup>  
y Maria Henar Borrego Pintado<sup>e</sup>

<sup>a</sup> Unidad de Broncoscopias y Técnicas Pleurales, Servicio de Neumología, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, Valladolid, España

<sup>b</sup> Servicio de Oncología Médica, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, Valladolid, España

<sup>c</sup> Servicio de Cirugía Torácica, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, Valladolid, España

<sup>d</sup> Servicio de Radiología, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, Valladolid, España

<sup>e</sup> Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, Valladolid, España

<sup>f</sup> Grupo Emergente de Neumología Intervencionista SEPAR (GEBRYN)

<sup>g</sup> Centro de Investigación en Red Enfermedades Respiratorias (CIBERES)

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [blancadevegasanchez@gmail.com](mailto:blancadevegasanchez@gmail.com)  
(B. de Vega Sánchez).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2019.05.014>

0300-2896/ © 2019 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

### Afectación pulmonar bilateral. Opciones no quirúrgicas del pseudotumor inflamatorio, a propósito de un caso



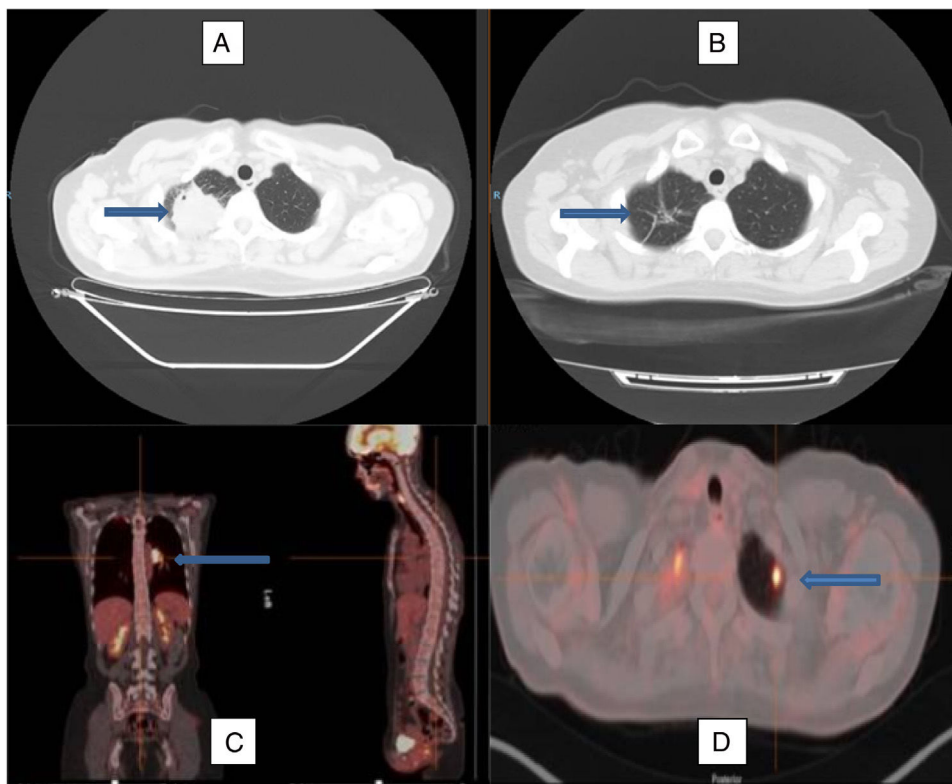
### Bilateral Pulmonary Involvement. Non-Surgical Options for Inflammatory Pseudotumor - A Case Report

Estimado Director:

El pseudotumor inflamatorio es una entidad rara que supone menos del 1% de todos los tumores localizados en el pulmón<sup>1</sup>. Refleja características radiológicas superponibles en las técnicas tomográficas convencionales respecto a otras entidades<sup>2</sup>, lo cual dificulta el diagnóstico diferencial, especialmente con el cáncer de pulmón.

Se presenta el caso de una mujer de 49 años, exfumadora, con un índice de consumo acumulado de 2 paquetes/año, con antecedentes personales de hipotiroidismo. Como tratamiento habitual tenía levotiroxina de 75 mcg, un comprimido al día. Acudió a urgencias hospitalarias por un cuadro de cefalea tras un episodio de sinusitis, sin clínica respiratoria asociada, donde en el estudio complementario básico se incluyó una radiografía simple de tórax, en la que se visualizó una lesión apical derecha de contornos irregulares, como

hallazgo incidental. Se solicitó una primera tomografía axial computarizada que fue informada como «masa tumoral redondeada en el vértice pulmonar derecho, de contornos irregulares, lobulados y con espiculaciones hacia el parénquima circundante. La lesión presenta un realce heterogéneo con el contraste, contactando ampliamente con la pleura apical posterior y superior, con un tamaño aproximado de unos 45 × 42 mm, sin evidencia de extensión o infiltración pleural o extrapleural; en el vértice pulmonar izquierdo se visualiza una pequeña imagen nodular subcentimétrica, subpleural, de dudosa significación». Ante este hallazgo se realizó una tomografía por emisión de positrones donde se destacó la presencia de dicha masa, metabólicamente activa, con un valor de consumo estandarizado máximo (SUVmáx) de 27,5, y la observada en el lóbulo superior izquierdo con un SUVmáx de 7,5. A nivel mediastínico se informó de adenopatías hiliares bilaterales, destacando un conglomerado hilar izquierdo de 3,2 × 2,1 × 4,1 cm con un SUVmáx de 14,1 (fig. 1). Ante la alta sospecha de malignidad se decidió la realización de una biopsia con aguja gruesa de la lesión mayor, cuyo resultado mostró la presencia de fibrosis e infiltrado linfocitario polimorfo sugestivo de proceso inflamatorio o pseudotumor inflamatorio con estudio molecular negativo para mutaciones del gen *EGFR*. No se realizó estudio para el gen *ALK*. Los marcadores tumorales (CEA, CA 15.3, CA 19.9, CYFRA-21, Ag de célu-



**Figura 1.** Imagen de tomografía axial computarizada al diagnóstico (A) y tras el tratamiento con corticoides (B), observándose la remisión de la lesión en el lóbulo superior derecho, permaneciendo en su localización algunos tractos fibrosos residuales (flechas). Imagen de PET-TAC con imagen hipercaptante en el hilio pulmonar izquierdo (C) y en el lóbulo superior izquierdo (D), marcadas por las flechas, que reflejan la afectación multilobulillar del caso.

las escamosas, Pro-GAP y enolasa) fueron negativos. No presentó anemia ni trombocitosis. Tras este resultado se estimó necesaria la confirmación mediante la realización de una nueva biopsia con aguja gruesa, cuyo diagnóstico fue similar y la realización de una fibrobroncoscopia, en la que se visualizó una mucosa engrosada de aspecto inflamatorio en el lóbulo inferior izquierdo, de donde se realizó cepillado bronquial a ciegas sin obtención de células neoplásicas. Ante la ausencia de datos de malignidad y la existencia de varias lesiones que dificultaban el abordaje quirúrgico, se acordó el inicio de tratamiento con deflazacor a dosis de 1 mg/kg de peso al día durante 2 meses, reduciéndose a la mitad los siguientes 2 meses y suspendiéndose al mes siguiente. Se realizaron 3 estudios de tomografía axial computarizada durante el tratamiento, observándose una disminución progresiva del tamaño tumoral, así como la presencia de tractos lineales fibrótico-cicatriciales y bronquiectasias por tracción en la zona, con desaparición del nódulo contralateral.

El pseudotumor inflamatorio puede localizarse en cualquier órgano, pero afecta principalmente al pulmón<sup>1</sup> y suele ser más frecuente en las 2 primeras décadas de la vida<sup>2</sup>. Normalmente se presenta como una masa única, circunscrita, mayor de 3 cm y más frecuentemente en los lóbulos inferiores<sup>3</sup>. Puede aparecer en la bibliografía con distintas denominaciones (granuloma de células plasmáticas, proliferación o tumor miofibroblástico inflamatorio, histiocitoma, xantoma, fibroxantoma, xantogranuloma, xantoma fibroso, pseudotumor xantomatoso, plasmocitoma, granuloma solitario de mastocitos, fibrosarcoma inflamatorio)<sup>4</sup>, lo que da cuenta de la complejidad, variabilidad histológica y comportamiento de esta entidad, hasta el punto de que, en ocasiones, puede ser clasificado como una verdadera neoplasia<sup>5</sup>. Su etiología es desconocida, aunque se cree que puede haber varios factores predisponentes: cirugías, traumatismos, reacciones

inmunológicas, esteroides, radioterapia o infecciones<sup>6</sup>. El papel de un agente infeccioso parece quedar restringido a los primeros estadios, iniciándose así una cascada de reacciones, a través de las cuales el tumor llega a ser autónomo<sup>7</sup>. Entre los microorganismos más frecuentemente asociados se incluyen las micobacterias, el virus de Epstein-Barr, *Actinomyces* y *Mycoplasma* y se han descrito algunos casos relacionados con *Corynebacterium equi*, *Escherichia coli*, *Klebsiella*, *Bacillus sphaericus*, *Pseudomonas*, *Helicobacter pylori*, *Coxiella burnetii*<sup>4,8,9</sup>, virus del herpes simple e incluso con infección por el VIH<sup>10</sup>. La anatomía patológica típica muestra bandas fibrosas interrumpidas por láminas irregulares de linfocitos, histiocitos y células plasmáticas policlonales<sup>11</sup>. Aunque la resección quirúrgica es el tratamiento de elección<sup>12</sup>, en los últimos años, en varios estudios, se ha documentado que en aproximadamente la mitad de los casos se presentan reordenamientos del gen ALK en el cromosoma 2p23, lo que causa su expresión aberrante<sup>13</sup>. Esto sugiere que este subgrupo podría mostrar sensibilidad a los inhibidores de la tirosina quinasa como el crizotinib<sup>14</sup>. Solamente existen series de casos publicados que apoyan su eficacia<sup>6,13</sup>, y ningún ensayo que compare la administración de crizotinib frente a corticoides en este subgrupo.

La terapia corticoidea presenta una eficacia variable con resultados limitados y no concluyentes en la literatura<sup>1,12,14,15</sup>, siendo utilizada en primera línea en pacientes no candidatos a cirugía<sup>1,14,15</sup>, como en la afectación bilateral. Lee et al. reportaron un caso similar en el que la respuesta a corticoides fue excelente, sin mostrar evidencia de recurrencia tras 20 meses de seguimiento tras la desaparición de las lesiones<sup>14</sup>. Díez et al. obtuvieron resultados similares tras tratamiento corticoideo a dosis bajas después de 30 meses<sup>15</sup>. Son pocos los casos descritos con lesiones bilaterales como el presentado y se desconocen la eficacia y el índice de

recurrencias tras el tratamiento esteroideo, por ausencia de estudios al respecto.

## Bibliografía

- Reddy RZ, Carter YM, Hsia DW. Pulmonary inflammatory pseudotumor causing collapse responding to corticosteroid therapy. *Resp Med Case Rep*. 2018;3:113–6.
- Wang XL, Shan W. Application of dynamic CT to identify lung cancer, pulmonary tuberculosis, and pulmonary inflammatory pseudotumor. *Eur Rev Med Pharmacol Sci*. 2017;21:4804–9.
- Agrons GA, Rosado-de-Christenson ML, Kirejczyk WM, Conran RM, Stocker JT. Pulmonary inflammatory pseudotumor: radiologic features. *Radiology*. 1998;206:511–8.
- Narla L, Newman B, Spottswood S, Narla S, Kolli R. Inflammatory pseudotumor. *Radiographics*. 2003;23:719–29.
- Lawrence B, Perez-Atayde A, Hibbard MK, Rubin BP, Dal Cin P, Pinkus GS, et al. TPM3-ALK and TPM4-ALK oncogenes in inflammatory myofibroblastic tumors. *Am J Pathol*. 2000;157:377–84.
- Coffin C, Hornick J, Fletcher C. Inflammatory myofibroblastic tumor: Comparison of clinicopathologic, histologic, and immunohistochemical features including ALK expression in atypical and aggressive cases. *Am J Surg Pathol*. 2007;31:509–20.
- Oscoz L, Hualde O, Ruperez G, Molins C, Sagaseta U, Molina G. Tumor miofibroblástico en la edad pediátrica. A propósito de 3 casos. *An Pediatr*. 2009;71:331–5.
- Dehner L. The enigmatic inflammatory pseudotumors: The current state of our understanding, or misunderstanding. *J Pathol*. 2000;192:277–9.
- Wood C, Nickoloff B, Todes-Taylor N. Pseudotumor resulting from atypical mycobacterial infection: A «histoid» variety of *Mycobacterium avium*-intracellulare complex infection. *Am J Clin Pathol*. 1985;83:524–7.
- Braun B, Cazorla A, Rivas C, Gargolas M, Fernández-Guerrero M. Inflammatory pseudotumor of the spleen in a patient with human immunodeficiency virus infection: A case report and review of the literature. *Ann Hematol*. 2003;82:511–4.
- Matsubara O, Tan-Liu NS, Kenney RM, Mark EJ. Inflammatory pseudotumors of the lung: progression from organizing pneumonia to fibrous histiocytoma or to plasma cell granuloma in 32 cases. *Hum Pathol*. 1988;19:807–14.
- Fabre D, Fadel E, Singhai S, de Montpreville V, Mussot S, Mercier O, et al. Complete resection of pulmonary inflammatory pseudotumors has excellent long-term prognosis. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2009;137:435–40.
- Butrynski JE, D'Adamo DR, Hornick JL, Dal Cin P, Antonescu CR, Jhanwar SC, et al. Crizotinib in ALK-rearranged inflammatory myofibroblastic tumor. *N Engl J Med*. 2010;363:1727.
- Lee MH, Lee HB, Lee YC, Rhee YK, Lee EJ, Chung MJ, et al. Bilateral multiple inflammatory myofibroblastic tumors of the lung successfully treated with corticosteroids. *Lung*. 2011;189:433–5.
- Díez JM, Fernández E, Sáez G, Cañizares F, Marín JL, López de la Osa A. Multifocal inflammatory pseudotumor of the lung with good response to corticoids. *Arch Bronconeumol*. 1998;34:102–4.

José Antonio Delgado Torralbo\*, María Pavón Masa y Estefanía Luque Crespo

Servicio de Neumología, Hospital Universitario Virgen Macarena, Sevilla, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: joseantoniodelgadotorralbo@gmail.com (J.A. Delgado Torralbo).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2019.06.003>

0300-2896/© 2019 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

## Hipercaptación ósea en <sup>18</sup>F-FDG-PET/TC en paciente con cáncer de pulmón, ¿es siempre una metástasis?



### Hypermetabolic Bone on <sup>18</sup>F-FDG-PET/CT in a Patient with Lung Cancer: Is it Always Metastasis?

Estimado Director:

Se presenta el caso de un paciente de 77 años, exfumador con un índice acumulado de 50 paquetes/año, con antecedentes de dislipemia, gammopatía monoclonal de significado incierto (GMSI) IgG lambda (componente monoclonal [CM]: 4,8 g/l) diagnosticado en 2014, estable y sin evidencia de progresión, no agudizador frecuente, en tratamiento broncodilatador, con grado de disnea mMRC 1, y sin ingresos previos por exacerbación. Asintomático desde el punto de vista respiratorio, y sin cuadro constitucional acompañante, en noviembre de 2017, tras los hallazgos en la radiografía de tórax de un nódulo pulmonar en un control rutinario se realizó una tomografía axial computarizada (TAC) de tórax que evidenció un nódulo espiculado de 13 mm en segmento anterior de lóbulo superior derecho (fig. 1), con contacto pleural y retracción de la cisura menor adyacente. La analítica (bioquímica, incluyendo proteínas totales, dosificación de inmunoglobulinas, proteinograma e índice de cadenas ligeras libres, hemograma y coagulación) fue normal. Se realizó una tomografía por emisión de positrones (<sup>18</sup>F-FDG-PET/TC) que mostró un nódulo sólido hipermetabólico (SUVmáx 7,5) espiculado de 14 mm con contacto puntiforme con pleura y cisura, sugestivo de etiología neoplásica primaria (fig. 1) y múltiples lesiones óseas hipermetabólicas, de componente lítico en el extremo distal de la clavícula derecha (SUVmáx 8,4) (fig. 1) y en el cuerpo vertebral de D3 y de aspecto blástico en la unión

cabeza/cuello femoral izquierdo (SUVmáx 12). Estas lesiones fueron atribuidas inicialmente a etiología metastásica. Además, se describía una irregular distribución del trazador en otras estructuras óseas, no concordante con lesiones morfológicas y con discreta actividad metabólica en manubrio esternal, que no permitían descartar una etiología secundaria. Se procedió a hacer una biopsia transtorácica guiada por TAC de la lesión pulmonar que fue positiva para adenocarcinoma de origen pulmonar. Con la intención de completar la estadificación (T1bN0Mx) se decidió hacer una biopsia de la lesión lítica de la clavícula derecha que fue positiva para neoplasia de células plasmáticas, compatible con plasmocitoma/mieloma múltiple (MM).

Tras los resultados de la biopsia ósea, se realizó una reevaluación de la enfermedad que mostró un CM estable (6,6 g/l), sin otras alteraciones analíticas, con estudio de orina de 24 h negativo y aspirado de médula ósea (MO) con infiltración por el 15% de células plasmáticas de morfología atípica (anisocitosis con predominio de elementos de gran tamaño, multinucleadas y ocasionalmente con nucléolo visible), irregularmente distribuidas, con áreas de hasta el 25%, de fenotipo anómalo. Se completó el estudio con resonancia magnética de cuerpo entero que mostró lesiones focales en cuerpo de T3 y en extremo distal de clavícula derecha altamente sugestivas de proceso infiltrativo, con dudosa infiltración medular vertebral difusa en el segmento T4-L4.

El paciente fue diagnosticado de forma concomitante de adenocarcinoma de pulmón T1bN0M0 (TNM 7.<sup>a</sup> edición) y GMSI transformada a mieloma múltiple IgG lambda oligosecretor, sintomático con afectación ósea, ISS 1.

El paciente presentaba una GMSI IgG lambda, entidad con una prevalencia que varía entre el 1 y el 3%, que se define como el hallazgo casual de componente monoclonal en suero, en un paciente sin criterios diagnósticos de mieloma múltiple, enfermedad de Waldenström, amiloidosis u otros síndromes