

Finalmente, tras el análisis histológico de las lesiones pulmonares se concluyó que se trataba de 2 tumores sincrónicos: carcinoma de células escamosas de LSI (pT1bN0) y carcinoma pleomórfico de células gigantes de LII (pT2bN0M1b). McNeill et al. y Berger et al. desarrollaron estudios con un número total de 1.975 pacientes con cáncer de pulmón donde solo el 0,5 y el 0,1%, respectivamente, manifestaron clínica intestinal debido a metástasis<sup>4,5</sup>. En estudios como el de Ito et al. basado en el comportamiento del carcinoma pleomórfico de pulmón en 22 pacientes se observaron metástasis hasta en 10 de ellos (45%) a lo largo del seguimiento<sup>6</sup>.

Las metástasis intestinales deben considerarse en el diagnóstico diferencial de los pacientes con carcinoma de pulmón y sintomatología digestiva, con mayor grado de sospecha en los casos de carcinoma pleomórfico.

El tratamiento quirúrgico urgente busca mejorar el pronóstico y la supervivencia a corto plazo.

El interés del caso no radica tan solo en el propio diagnóstico de la metástasis intestinal, si no en el falso negativo del estudio de extensión, completado 6 semanas antes de la cirugía, que de forma inusual no evidenció la lesión abdominal, lo que hubiera cambiado la estrategia terapéutica inicial. Este hecho podría atribuirse a la agresividad descrita en esta estirpe histológica<sup>7,8</sup>.

### Bibliografía

1. Yendamuri S, Caty L, Pine M, Adem S, Bogner P, Miller A, et al. Outcomes of sarcomatoid carcinoma of the lung: A Surveillance, Epidemiology, and End Results Database analysis. *Surgery*. 2012;152:397–402.
2. Sánchez de Cos J, Disdier C, Corral J, Riesco JA, Sojo MA, Masa JF. Supervivencia global a largo plazo en el cáncer de pulmón. Análisis de una serie de 610 pacientes no seleccionados. *Arch Bronconeumol*. 2004;40:268–74.

3. Travis WD, Brambilla E, Müller-Hermelink K, Harris C, Kleihues C, Sobin P. Pathology and genetics of tumors of the lung, pleura, thymus. En: William D, Travis E, Brambilla H, Müller-Hermelink K, Harris C, editores. World Health Organization. Classification of Tumours. Lyon: IARC Press; 2004. p. 53–8.
4. McNeill PM, Wagman LD, Neifeld JP. Small bowel metastases from primary carcinoma of the lung. *Cancer*. 1987;59:1486–9.
5. Berger A, Cellier C, Daniel C, Dron C, Riquet M, Barbier JP, et al. Small bowel metastases from primary carcinoma of the lung: Clinical findings and outcome. *Am J Gastroenterol*. 1999;94:1884–7.
6. Ito K, Oizumi S, Fukumoto S, Harada M, Ishida T, Fujita Y, et al. Hokkaido Lung Cancer Clinical Study Group. Clinical characteristics of pleomorphic carcinoma of the lung. *Lung Cancer*. 2010;68:204–10.
7. Chang YL, Wu CT, Shih JY, Lee YC. EGFR and p53 status of pulmonary pleomorphic carcinoma: Implications for EGFR tyrosine kinase inhibitors therapy of an aggressive lung malignancy. *Ann Surg Oncol*. 2011;18:2952–60.
8. Fujii Y, Homma S, Yoshida T, Taketomi A. Jejunal intussusception caused by metastasis of a giant cell carcinoma of the lung. *BMJ Case Rep*. 2016. <http://dx.doi.org/10.1136/bcr-2016-216030>, 2016.

Javier Varela Recio<sup>a,\*</sup>, Violeta Camacho Marente<sup>a</sup>, Ana Triviño Ramirez<sup>b</sup>, Dionisio Espinosa Jimenez<sup>b</sup> y Jose Manuel Pacheco Garcia<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Servicio de Cirugía General y Digestivo, Hospital Puerta del Mar, Cádiz, España

<sup>b</sup> Servicio de Cirugía Torácica, Hospital Puerta del Mar, Cádiz, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [javier.vr22@hotmail.com](mailto:javier.vr22@hotmail.com) (J. Varela Recio).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2019.10.022>

0300-2896/ © 2020 Published by Elsevier España, S.L.U. on behalf of SEPAR.

### Tratamiento quirúrgico de quilotórax postrasplante pulmonar por linfangioleiomiomatosis



#### Surgical Treatment of Chylothorax After Lung Transplantation for Lymphangiomyomatosis

Estimado Director:

Presentamos el caso de una paciente de 64 años sometida a un trasplante unipulmonar derecho por linfangioleiomiomatosis (LAM), realizado sin complicaciones intraoperatorias ni postoperatorias inmediatas. Al séptimo día postoperatorio, presentó un débito pleural lechoso por los drenajes pleurales, con características de exudado, linfocítico, con cifra de triglicéridos de 630 mg/dl, siendo diagnosticada de quilotórax derecho. Se instauró tratamiento dietético con nutrición enteral, aporte de triglicéridos de

cadena media y octeótrido durante una semana. Sin embargo, ante la persistencia del quilotórax (fig. 1B), se indica tratamiento quirúrgico.

Una hora antes del procedimiento quirúrgico, se administró una solución oral de leche con mantequilla para poder localizar macroscópicamente la fístula quilosa durante la cirugía. Tras la disección del espacio paraesofágico y periaórtico, se localizó una fístula quilosa en el conducto torácico y aferentes del mismo (fig. 1A). Se procedió a la ligadura de los mismos y a la colocación de sellantes hemostáticos en superficie. La paciente evolucionó favorablemente, con resolución completa del quilotórax, encontrándose en buen estado clínico a los 12 meses de la intervención.

La LAM es una enfermedad rara multisistémica propia del sexo femenino y catalogada como una enfermedad neoplásica de bajo grado. Se caracteriza por insuficiencia respiratoria progresiva, neumotórax recidivantes, angiomiolipomas renales y enfermedad linfática (quilotórax, ascitis quilosa o linfangioleiomiomas)<sup>1,2</sup>.

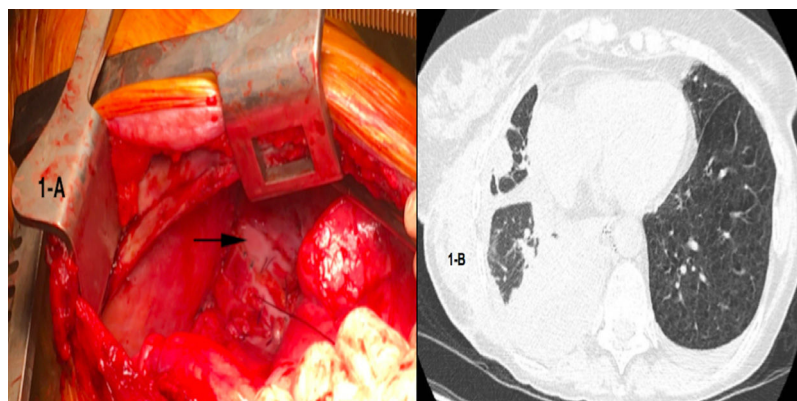


Figura 1. A: identificación de la fístula quilosa en el acto quirúrgico. B: TC mostrando el quilotórax refractario al tratamiento médico y dietético.

Radiológicamente, se caracteriza por la presencia de múltiples quistes intersticiales, redondeados y de bordes finos<sup>3</sup>. Según la ERS, el diagnóstico de LAM se establece ante la presencia de hallazgos radiológicos característicos, asociados a angiomiolipomas renales, quilotórax, ascitis quilosa, linfangiomiolipoma o adenomegalias<sup>4</sup>. En ausencia de estos, se indica una biopsia pulmonar.

El trasplante pulmonar está indicado en estadios avanzados de la enfermedad, sin respuesta a tratamiento médico, con supervivencia del 65% a los 5 años del trasplante, representando solo el 1% de las indicaciones para trasplante pulmonar según el Registro Internacional<sup>5</sup>.

Entre el 7 y el 10% de los pacientes con LAM desarrollan un quilotórax, que debe tratarse precozmente dado que conlleva un estado de desnutrición, inmunodepresión, insuficiencia respiratoria y metabólica y desequilibrio electrolítico, que pueden llevar al fallecimiento del paciente<sup>6</sup>.

En nuestro caso, el diagnóstico se sospechó al apreciar cambios en las características macroscópicas del débito de los drenajes pleurales, que coincidió con el inicio de tolerancia vía oral, y se confirmó con la determinación de triglicéridos en el exudado pleural. Se inició tratamiento con dieta exenta de grasas, triglicéridos de cadena media y oxeótrido, con el fin de reducir las secreciones gastrointestinales y el flujo sanguíneo esplácnico<sup>7,8</sup>. El sirolimús también ha demostrado su eficacia en el control del quilotórax<sup>9</sup>, pero en nuestro caso concreto no se empleó por riesgos en el proceso de cicatrización tras la cirugía reciente. Sin embargo, las medidas conservadoras no fueron suficientes, sugiriendo la presencia de una solución de continuidad del conducto torácico de calibre significativo. Por tal motivo, se indicó una revisión quirúrgica del paciente.

Cuando el tratamiento conservador fracasa, como en el presente caso, se indican procedimientos invasivos como la cirugía, la pleurodesis química, los sistemas de derivación o la embolización linfática percutánea<sup>10</sup>. Estos procedimientos se contemplan cuando el débito del quilotórax sea mayor de 1 l/día durante más de 5–7 días.

Los procedimientos quirúrgicos descritos son la ligadura del conducto torácico o, en caso de no localizarlo, ligar el tejido graso que se ubica entre la aorta, los cuerpos vertebrales, el esófago y la vena álgica. En algunos casos, se ha propuesto la pleurodesis mecánica como un método igualmente efectivo; no obstante, en el caso que nos ocupa, se desestimó este procedimiento puesto que la paciente, debido su enfermedad de base, presentaba anomalías anatómicas y morfológicas de los vasos quilíferos aferentes de la pleural parietal.

En resumen, la presencia de un quilotórax en el postoperatorio de un trasplante pulmonar por LAM requiere inicialmente un tratamiento conservador, dietético y farmacológico, de insaturación precoz. Si pese a estas medidas el quilotórax fuera inagotable o recidivara tras reintroducir la dieta enteral, se debe

optar por la exploración quirúrgica. En nuestro caso, por tratarse de una paciente recientemente trasplantada, se desaconsejó el tratamiento con sirolimús debido a la alta posibilidad de dehiscencias de sutura tras el reciente trasplante pulmonar.

## Bibliografía

1. Taveria-Da Silva AM, Moss J. Epidemiology, pathogenesis and diagnosis of lymphangioleiomyomatosis. *Experts Opin Orphan Drugs*. 2016;4:369–78.
2. McCormack FX, Travis WD, Colby TV, Henske EP, Moss J. Lymphangioleiomyomatosis: Calling it what it is: a low grade, metastasizing neoplasm. *Am J Respir Crit Care Med*. 2012;186:1210–2.
3. Zhang C, Chen X, Wen T, Zhang Q, Huo M, Dong J, et al. Computed tomography lymphangiography findings in 27 cases of lymphangioleiomyomatosis. *Acta Radiol*. 2017;58:1342–8.
4. Johnson SR, Cordier JF, Lazor R, Cottin V, Costabel U, Harari S, et al. European respiratory society guidelines for the diagnosis and management of lymphangioleiomyomatosis. *Eur Respir J*. 2010;35:14–26.
5. Chambers DC, Cherikh WS, Goldfarb SB, Hayes D, Kucheryavaya AY, Toll AE, et al. The International Thoracic Organ Transplant Registry of the International Society for Heart and Lung Transplantation: Thirty-fifth adult lung and heart-lung transplant report –2018; Focus theme: Multiorgan transplantation. *J Heart Lung Transplant*. 2018;37:1169–83.
6. Ryu JH, Moss J, Beck GJ, Beck GJ, Lee J, Brownet KK, et al. The NHLBI lymphangioleiomyomatosis registry: Characteristics of 230 patients at enrollment. *Am J Respir Care Med*. 2006;173:105–11.
7. Pakula AM, Phillips W, Skinner RA. A case of a traumatic chyle leak following an acute thoracic spine injury: Successful resolution with strict dietary manipulation. *World J Emerg Surg*. 2011;5:10.
8. Schild HH, Strassburg CP, Welz A, Kalff J. Treatment options in patients with chylothorax. *Dtsch Arztebl Int*. 2013;110:819–26.
9. Barrera P, Simons SO, Luijk B, Wessels MJ, Heijdra YF. Sirolimus. Efficacy of sirolimus therapy for chyloous effusions in lymphangioleiomyomatosis. *Ann Am Thorac Soc*. 2013;10:408–9.
10. Fremont RD, Milstone AP, Light RW, Ninan M. Chylothoraces after lung transplantation for lymphangioleiomyomatosis: Review of the literature and utilization of a pleurovenous shunt. *J Heart Lung Transplant*. 2007;26:953–5.

Francisco Javier González García<sup>a,\*</sup>,  
Carlos Baamonde Laborda<sup>b</sup>, Anna Muñoz Fos<sup>a</sup>,  
Paula Moreno Casado<sup>a</sup>, Javier Redel Montero<sup>b</sup>,  
Javier Algar Algar<sup>a</sup>, Francisco Cerezo Madueño<sup>a</sup>,  
David Poveda Chaves<sup>a</sup>, Eloisa Ruiz López<sup>a</sup>,  
Ángel Salvatierra Velázquez<sup>a</sup> y Antonio Álvarez Kindelán<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Servicio de Cirugía Torácica y Trasplante Pulmonar, Hospital Reina Sofía, Córdoba, España

<sup>b</sup> Servicio de Neumología y Trasplante Pulmonar, Hospital Reina Sofía, Córdoba, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [fjaviergonzalez@outlook.com](mailto:fjaviergonzalez@outlook.com)  
(F.J. González García).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2019.11.012>

0300-2896/ © 2020 Published by Elsevier España, S.L.U. on behalf of SEPAR.

## Coping With Low Mortality and Exacerbation Rate Differences Between COPD Triple Therapy Studies, and a Proposal for Upcoming Studies



**Hacer frente a la baja mortalidad y las diferencias en la tasa de exacerbación entre los diferentes estudios de triple terapia para la EPOC, y una propuesta para próximos estudios**

Dear Editor:

The management of chronic obstructive pulmonary disease (COPD) is a challenge, particularly for patients with a low FEV<sub>1</sub> where long-acting muscarinic antagonist (LAMA), or a combination

of a long-acting  $\beta_2$  agonist (LABA) plus an inhaled corticosteroid (ICS) therapies are not able to reduce exacerbation rates. In recent years, triple therapy in one inhaler, consisting of a fixed-dose combination of an ICS, a LAMA, and a LABA, has been proposed for patients with COPD in whom earlier regimens have failed to reduce the rate of exacerbation. To date, six randomized clinical trials have been published with promising results showing altogether a reduction of exacerbation rates or a lower mortality when triple therapy was compared with other alternatives. Nevertheless, the methodology (i.e. inclusion criteria, follow-up), the treatments compared, the endpoints considered, and co-variables collected were different among them, making difficult to decide which triple therapy should fit better for which type of patient.<sup>1</sup> We would