

se mantiene anfotericina B nebulizada. En el cultivo de la muestra quirúrgica se aisló *Aspergillus niger* que se negativizó tras la cirugía. El paciente fue dado de alta a las tres semanas con buena situación clínica y actualmente continúa con curas locales diarias en centro de salud y revisiones periódicas por parte del servicio de Cirugía Torácica y Neumología.

El principal problema en el seguimiento del paciente es la persistencia de fístulas aéreas en la cavernostomía (fig. 1D) que impide la utilización de terapias de presión negativa, ya que provocarían aumento del débito de la fuga. Igualmente, hemos desestimado el cierre de esta con mioplastia debido a la escasa masa muscular que presenta el paciente que hace inviable esta intervención. Una alternativa que nos planteamos es la utilización de válvulas endobronquiales para obliterar el bronquio o bronquios segmentarios afectados por la fístula aérea persistente, aunque debido a la negativa del paciente a someterse a procedimientos adicionales hace que igualmente hayamos desestimado esta alternativa.

La revisión de la literatura sobre el tratamiento quirúrgico del aspergiloma se basa esencialmente en series de casos, siendo la indicación de cirugía más frecuente la hemoptisis refractaria a tratamiento conservador y en pacientes asintomáticos como medio diagnóstico. En todas las series, el procedimiento más ampliamente realizado es la lobectomía seguido de resecciones sublobulares y de bilobectomía o neumonectomía. La cavernoplastia o cavernostomía ha quedado relegada como última opción en todas las series, habiendo escasa literatura al respecto. La tasa de complicaciones postoperatorias es del 20-30% y la mortalidad postoperatoria inmediata del 5-10%⁵⁻⁹.

Se han publicado series de casos en los que se ha realizado tratamiento intracavitario con antifúngicos mediante broncoscopia flexible e incluso la eliminación del aspergiloma mediante esta técnica^{10,11}.

En pacientes con buen estado basal y aceptable riesgo quirúrgico la técnica de elección es la resección pulmonar, ya sea en forma de neumonectomía, lobectomía o resección en cuña. La cavernostomía puede ser una alternativa en pacientes con elevado riesgo quirúrgico como el que presentamos, ya que puede proporcionar control adecuado de la infección y de la hemoptisis, aunque no está exenta de complicaciones, sobre todo hemorrágicas, y requiere seguimiento estrecho con curas locales y durante períodos largos de tiempo¹².

Financiación

Este trabajo no ha recibido ningún tipo de financiación.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

Bibliografía

- Lang M, Lang AL, Chauhan N, Gill A. Non-surgical treatment options for pulmonary aspergilloma. *Respir Med*. 2020 Apr;164:105903.
- Faulkner SL, Vemon R, Brown PP, Fisher RD, Bender HW. Hemoptysis and pulmonary aspergilloma: operative versus non-operative treatment. *Ann Thorac Surg*. 1978;25:389-92.
- Belcher JR, Plummer NS. Surgery in bronchopulmonary aspergillosis. *Br J Dis Chest*. 1960;54:335-41.
- Battaglini JW, Murray GF, Keagy BA, Starck PJ, Wilcox BR. Surgical management of symptomatic pulmonary aspergilloma. *Ann Thorac Surg*. 1984;39:512-6.
- Park CK, Jheon S. Results of surgical treatment for pulmonary aspergilloma. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2002;21:918-23.
- Ruiz Júnior RL, Oliveira FHS, Piotta BLB, Muniz FASSL, Cataneo DC, Cataneo AJM. Surgical treatment of pulmonary aspergilloma. *J Bras Pneumol*. 2010;36:779-83.
- Qian-Kun Chen, Ge-Ning Jiang, Jia-An. Surgical treatment for pulmonary aspergilloma: a 35-year experience in the Chinese population. *Interact Cardiovasc Thorac Surg*. 2012;15:77-80.
- Massard G, Roeslin N, Wihlm JM, Dumont P, Witz JP, Morand G. Pleuropulmonary Aspergilloma: Clinical Spectrum and Results of Surgical Treatment. *Ann Thorac Surg*. 1992;54:1159-64.
- Daly RC, Pairolero PC, Piehler JM, Trastek VF, Payne WS, Bernatz PE. Pulmonary aspergilloma: results of surgical treatment. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1986;92:981-8.
- Stather DR, Tremblay A, MacEachern P, Chee A, Dumoulin E, Tourin O. Intracavitary pulmonary aspergilloma removal. *Ann thorac surg*. 2017;103:945-55.
- Kravitz JN, Berry MW, Shabel SI, Judson MA. A Modern Series of Percutaneous Intracavitary Instillation of Amphotericin B for the Treatment of Severe Hemoptysis From Pulmonary Aspergilloma. *Chest*. 2013;143:1414-21.
- Cesar JM, Resende JS, Amaral NF, Alves CM, Vilhena AF, Silva FL. Cavernostomy x Resection for Pulmonary Aspergilloma: A 32-Year History. *J Cardiothorac Surg*. 2011;6:129. <http://dx.doi.org/10.1186/1749-8090-6-129>.

Juan Gómez Tabales^{a,b,*}, Daniel Andrades Sardiña^{a,b}, Carmen Sánchez Matás^{a,b}, Sara Monge Blanco^{a,b}, Francisco García Gómez^{a,b}, José Luis López Villalobos^{a,b}, Francisco Javier de la Cruz Lozano^{a,b}, Rafael Manuel Barroso Peñalver^{a,b} y Ana Isabel Blanco Orozco^{a,b}

^a Servicio de Cirugía Torácica. Hospital Universitario Virgen del Rocío, Sevilla, España

^b Unidad médico-quirúrgica de enfermedades respiratorias (UMQUER). Servicio de Cirugía Torácica. Hospital Universitario Virgen del Rocío, Sevilla, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: j.gomez.tabales@gmail.com (J. Gómez Tabales).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2020.04.010>

0300-2896/ © 2020 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Derrame pleural y pericárdico como única manifestación de enfermedad relacionada con IgG4



Pleural and Pericardial Effusion as the Only Manifestation of IgG4-Related Disease

Estimado Director:

La enfermedad relacionada con IgG4 es una entidad clínico-patológica recientemente descrita que presenta un amplio espectro de manifestaciones clínicas con una histopatología común: Infiltrado linfoplasmocitario denso, flebitis obliterativa y fibrosis

estoriforme¹. Los órganos más frecuentemente afectados son el páncreas, las glándulas salivales y los ganglios linfáticos, aunque puede comprometer casi cualquier parte de la anatomía¹. La manifestación torácica más frecuente es la presencia de adenopatías mediastínicas y la afectación pulmonar que puede ser muy variable, desde lesiones localizadas a difusas². El derrame pleural se ha descrito en un 4% de los pacientes y el pericardio se afecta en el 2% de los casos³, aunque generalmente aparecen junto a otras manifestaciones sistémicas y su presentación aislada es poco común^{4,5}. Recientemente hemos tenido la oportunidad de atender a una paciente con un derrame pleural y pericárdico que fue diagnosticada de enfermedad relacionada con la IgG4, por lo que nos ha parecido de interés su comunicación.

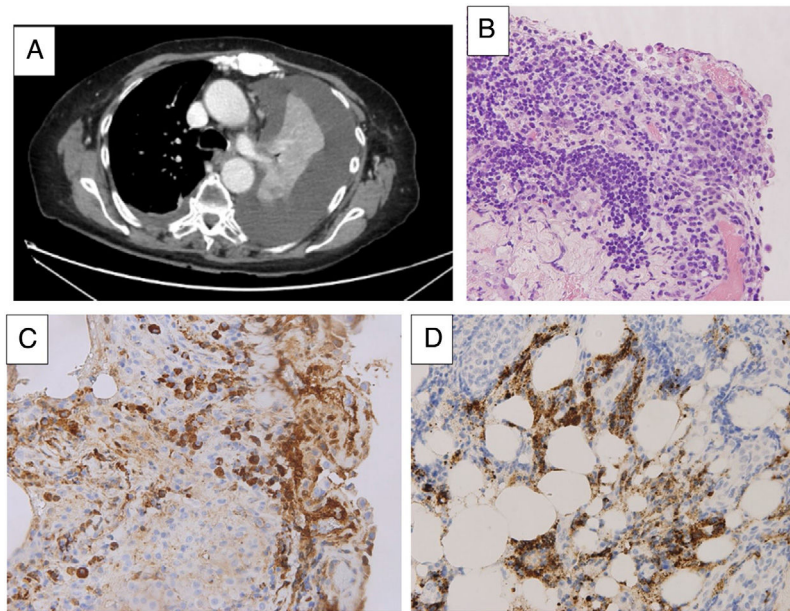


Figura 1. A. Imagen de TC torácico que muestra derrame pleural izquierdo con atelectasia pulmonar. B. Biopsia pleural (hematoxilina-eosina): Se objetiva pleuritis fibrinohe-morrágica con hiperplasia mesotelial severa e infiltrado plasmocelular denso. C. Biopsia pleural (tinción inmunohistoquímica para IgG): Se observa un infiltrado de abundantes células plasmáticas de tipo IgG. D. Biopsia pleural (tinción inmunohistoquímica para IgG4): Se aprecia un marcado incremento de células plasmáticas productoras de IgG4 con áreas de más de 50 células por campo de gran aumento y ratio IgG4/IgG del 49%.

Se trata de una mujer de 76 años que consulta por un síndrome general de varios meses de evolución con pérdida de 7 kg de peso, que se acompaña en el último mes de una molestia epigástrica continua no irradiada y debilidad generalizada. No refirió en ningún momento fiebre, tos o disnea. Fue diagnosticada de un carcinoma de mama 22 años antes, realizándose una mastectomía simple, que presentó una recidiva 12 años después, tratada con mastectomía y linfadenectomía, quimioterapia y hormonoterapia, siendo los controles posteriores normales.

A su ingreso la paciente estaba afebril, con TA 135/70 mmHg y saturación basal de oxígeno del 97%. La presión venosa yugular y la auscultación cardíaca fueron normales y destacaba una hipoventilación del hemitórax izquierdo. No se detectaron adenopatías, hepatomegalia ni edemas. La radiografía de tórax mostró un derrame pleural izquierdo masivo y la ecocardiografía transtorácica un derrame pericárdico ligero con abundante fibrina, sin signos de taponamiento cardíaco.

Las pruebas de laboratorio, que incluyeron hemograma, bioquímica con función renal, enzimas hepáticas, proteínas, albúmina, calcio, TSH, ECA, coagulación, elemental de orina y sedimento urinario, fueron normales, así como la proteinuria (45 mg/24 h). Solamente destacaba una VSG de 68 mm y una PCR de 16 mg/dL.

Ante la presencia de un derrame pleural de etiología desconocida⁶, se realizó una toracocentesis que mostró un líquido pleural serofibrinoso con 4,8 g/dL de proteínas, LDH de 317 U/l y ADA normal. La tinción de Gram y el cultivo del líquido pleural fueron negativos y en la citología se observó un 50% de linfocitos, no apreciándose células malignas.

La tomografía computarizada (TC) toraco-abdomino-pélvica mostró un derrame pleural masivo izquierdo con atelectasia completa del hemitórax correspondiente y desviación mediastínica hacia el lado contralateral, derrame pleural derecho de menor cuantía y derrame pericárdico. No se observaron engrosamientos pleurales, adenopatías ni lesiones pulmonares, aunque se detectó una lesión hipodensa cortical renal izquierda de 3 x 2 cm radiológicamente inespecífica. Se realizó una tomografía por emisión de positrones que únicamente mostró captación difusa en la pleura y el pericardio inflamados. La serología frente a *Myc-*

plasma pneumoniae, *Coxiella burnetii*, *Legionella pneumophila* y VIH fueron negativas, así como la determinación del QuantiferonTB®. Los anticuerpos antinucleares (ANA), anticitoplasma del neutrófilo (ANCA), el factor reumatoide y el complemento fueron normales. En el proteinograma se observó una doble banda monoclonal en región beta IgA lambda de 0,8 g/dL, aunque la biopsia de médula ósea descartó la existencia de un mieloma y la tinción de amiloide fue negativa en médula ósea y pleura. Presentaba unos niveles de plasmablastos ligeramente elevados en sangre periférica (954 células/mL) con niveles de IgG4 normales (90 mg/dL).

Se realizó una videotoracosocopia, encontrándose ausencia de nodularidad con una pleura hiperémica sin otras lesiones significativas. En la citometría del líquido pleural no se observó población linfocítica clonal y el estudio histológico mostró una pleuritis fibrinohe-morrágica con hiperplasia mesotelial severa e infiltrado plasmocelular denso, con marcado incremento de células plasmáticas productoras de IgG4 (más de 50 células por campo de gran aumento) y una relación IgG/IgG4 del 49%. No se apreció infiltración neoplásica ni presencia de granulomas (fig. 1).

Se inició tratamiento con prednisona (40 mg diarios), disminuyendo el derrame pleural, mejorando el estado general y normalizándose las alteraciones analíticas (VSG y PCR).

Varias semanas después, la paciente se encontraba asintomática. Se inició pauta descendente de corticoides y se asoció tratamiento con rituximab⁷. En la ecografía abdominal realizada tres meses tras el inicio del tratamiento se objetivó la persistencia de la masa renal. La enfermedad relacionada con IgG4 puede asociarse a neoplasias⁸ y lesiones pseudotumorales⁹ (como pseudotumores renales inflamatorios¹⁰), por lo que se ha optado por un manejo conservador y seguimiento estrecho antes de realizar pruebas invasivas.

La afectación torácica en la enfermedad relacionada con la IgG4 puede incluir al parénquima pulmonar, las vías respiratorias, el mediastino y la pleura. Histológicamente, pueden estar ausentes la fibrosis estoriforme y la flebitis obliterativa², aunque la presencia de > 50 células plasmáticas por campo de gran aumento y una proporción de células plasmáticas productoras de IgG4/células plasmáticas productoras de IgG > 40% en la biopsia pleural es

altamente sugestiva de pleuritis por IgG4^{1,2}. Por otra parte, a pesar de que la concentración sérica de IgG4 suele estar elevada en esta enfermedad (> 135 mg/dL), hasta un 30% de los pacientes que la padecen presentan concentraciones normales de esta inmunoglobulina¹¹, como en nuestro caso.

Los pacientes que presentan de forma aislada manifestaciones poco frecuentes de la enfermedad relacionada con la IgG4, pueden no cumplir los criterios de clasificación de la misma¹², por lo que es importante valorar los datos clínicos y pruebas complementarias disponibles. Su tratamiento depende fundamentalmente de la sintomatología, aunque los glucocorticoides son un pilar básico. Recientemente se ha señalado que la asociación de rituximab permite disminuir la recidiva de la enfermedad⁷.

Por tanto, a pesar de la baja prevalencia de afectación pleural en la enfermedad relacionada con la IgG4¹³, dada la buena respuesta al tratamiento con corticoides, conviene descartar esta entidad en pacientes con derrame pleural exudativo de predominio linfocítico de causa desconocida, aunque no haya otras manifestaciones sistémicas sugestivas, siendo fundamental el manejo multidisciplinar de estos casos¹⁴.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés relacionado directa o indirectamente con los contenidos del manuscrito.

Bibliografía

- Deshpande V, Zen Y, Chan JK, Yi EE, Sato Y, Yoshino T, et al. Consensus statement on the pathology of IgG4-related disease. *Mod Pathol*. 2012;25:1181-92, <http://dx.doi.org/10.1038/modpathol.2012.72>.
- Ryu JH, Sekiguchi H, Yi ES. Pulmonary manifestations of immunoglobulin G4-related sclerosing F disease. *Eur Respir J*. 2012;39:180-6, <http://dx.doi.org/10.1183/09031936.00025211>.
- Fernández-Codina A, Martínez-Valle F, Pinilla B, López C, DeTorres I, Solans-Laqué R, et al. IgG4-related disease: results from a multicenter Spanish registry. *Medicine (Baltimore)*. 2015;94:e1275, <http://dx.doi.org/10.1097/MD.0000000000001275>.
- Murata Y, Aoe K, Mimura Y. Pleural effusion related to IgG4. *Curr Opin Pulm Med*. 2019;25:384-90, <http://dx.doi.org/10.1097/MCP.0000000000000581>.
- Gajewska ME, Rychwicka-Kielek BA, Sørensen K, Kubik M, Hillberg O, Bendstrup E. Immunoglobulin G4-related pleuritis-A case report. *Respir Med Case Rep*. 2016;19:18-20, <http://dx.doi.org/10.1016/j.rmcr.2016.05.006>.
- Villena Garrido V, Ferrer Sancho J, Hernández Blasco L, de Pablo Gafas A, Pérez Rodríguez E, Rodríguez Panadero F, et al. Diagnosis and treatment of pleural effusion. *Arch Bronconeumol*. 2006;42:349-72, [http://dx.doi.org/10.1016/s1579-2129\(06\)60545-4](http://dx.doi.org/10.1016/s1579-2129(06)60545-4).
- Carruthers MN, Topazian MD, Khosroshahi A, Witzig TE, Wallace ZS, Hart PA, et al. Rituximab for IgG4-related disease: a prospective, open-label trial. *Ann Rheum*. 2015;74:1171-7, <http://dx.doi.org/10.1136/annrheumdis-2014-206605>.

8. Ebbo M, Grados A, Bernit E, Vély F, Boucraut J, Harlé JR, et al. Pathologies Associated with Serum IgG4 Elevation. *Int J Rheumatol*. 2012;2012:602809, <http://dx.doi.org/10.1155/2012/602809>.
9. Sodavarapu S, Ghotra GS, Obad N, Goyal M, Gill AS. IgG4-Related Diseases-Continues To Be a Cancer Mimicker. *Cureus*. 2020;12:e6610, <http://dx.doi.org/10.7759/cureus.6610>.
10. Carrillo-Córdova LD, Carrillo-Córdova CA, Vitar-Sandoval J, Jaspersen-Álvarez J, Villena-López EL, Carrillo-Esper R. Urological manifestations of the disease related to immunoglobulin G4. *Cir Cir*. 2019;86:57-64, <http://dx.doi.org/10.24875/CIRUE.M18000009>.
11. Sah RP, Chari ST. Serologic issues in IgG4-related systemic disease and autoimmune pancreatitis. *Curr Opin Rheumatol*. 2011;23:108-13, <http://dx.doi.org/10.1097/BOR.0b013e3283413469>.
12. Wallace ZS, Naden RP, Chari S, Choi HK, Della-Torre E, Dicaire JF, et al. The 2019 American College of Rheumatology/European League Against Rheumatism classification criteria for IgG4-related disease. *Ann Rheum Dis*. 2020;79:77-87, <http://dx.doi.org/10.1136/annrheumdis-2019-216561>.
13. Kita T, Araya T, Ichikawa Y, Terada N, Kawashima A, Kasashima S, et al. IgG4-related pleuritis with no other organ involvement. *Am J Med Sci*. 2018;356:487-91, <http://dx.doi.org/10.1016/j.amjms.2018.05.004>.
14. Ip H, Sivakumar P, McDermott EA, Agarwal S, Lams B, West A, et al. Multidisciplinary approach to connective tissue disease (CTD) related pleural effusions: a four-year retrospective evaluation. *BMC Pulm Med*. 2019;19:161, <http://dx.doi.org/10.1186/s12890-019-0919-2>.

Mónica Tello-Sánchez^{a,*},
 María Soledad Rodríguez-Duque^b, Claudia Loidi-López^c,
 Juan Martín-Arroyo^d, Miguel Ángel González-Gay^e
 y Marta Fernández-Ayala Novo^f

^a Servicio de Medicina Intensiva, Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, Cantabria, España

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, Cantabria, España

^c Servicio de Cirugía Torácica, Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, Cantabria, España

^d Servicio de Neurología, Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, Cantabria, España

^e Servicio de Reumatología, Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, Cantabria, España

^f Servicio de Medicina Interna, Hospital Universitario Marqués de Valdecilla, Santander, Cantabria, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: mtelosc@gmail.com (M. Tello-Sánchez).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2020.04.013>

0300-2896/ © 2020 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Quilotórax espontáneo secundario a dasatinib



Chylothorax Secondary to Dasatinib

Dasatinib es un potente inhibidor de la tirosina-cinasa BCR-ABL1 de segunda generación (*tyrosine kinase*, TKI) que se emplea a una dosis diaria de 100 mg, como terapia de primera línea en pacientes con leucemia mieloide crónica (LMC) en fase de mantenimiento, y en pacientes resistentes o intolerantes a la terapia previa^{1,2}.

Dasatinib se ha asociado con la aparición de derrame pleural (DP), producido por distintos mecanismos³. El quilotórax secundario ha sido raramente descrito en la literatura⁴⁻⁹.

Mujer de 63 años que acudió al servicio de urgencias por cuadro de dos meses de evolución, consistente en disnea de esfuerzo y en decúbito lateral izquierdo, sin fiebre, dolor torácico o síndrome constitucional. Como antecedentes, estaba diagnos-

ticada con LMC, en tratamiento con dasatinib 100 mg/día por vía oral desde hace un año. A la exploración estaba eupneica, con buen estado general, TA: 146/80 mmHg; T^a: 35.5 °C; FC: 80 latidos/min; SpO₂: 97%. La auscultación pulmonar mostraba disminución del murmullo vesicular en campo inferior izquierdo, con semiología de DP. El resto era normal. La radiografía de tórax mostró DP izquierdo en tercio inferior, con silueta cardiaca normal (fig. 1A).

El hemograma mostró 5.900 leucocitos con 54% neutrófilos, 25,4% linfocitos, 7,2% eosinófilos, hemoglobina 12,8 g/dL, volumen corpuscular medio 90,6, 24.2000 plaquetas, VSG 34 mm. La bioquímica, estudio de autoinmunidad e inmunoglobulinas fueron normales. La toracocentesis reveló líquido pleural (LP) de aspecto lechoso, con los siguientes valores: glucosa 90 mg/dL, albúmina 2,30 g/dL, LDH 152 u/L, proteínas 5,05 g/dL, colesterol 106 mg/dL, triglicéridos 334 mg/dL, CEA 1,2 ng/mL, factor reumatoide < 10 UI/mL, ANA negativos, leucocitos 1.470/mm³, hematíes