CASOS CLÍNICOS

TUMOR ADENOMATOIDE PLEURAL*

Dr. Iván Gallegos M.¹, Claudio Arce F.¹, Ints. Josefina Herrera L.²,
Viera Kaplan Z.², Drs. Cristina Fernández F.¹,

¹ Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Clínico Universidad de Chile.

² Internas de Medicina, Universidad de Chile.
Santiago, Chile.

Abstract

Adenomatoid pleural tumor

Introduction: Adenomatoid tumors are rare benign neoplasms, pleural is a very rare location, reporting only 4 cases worldwide and none in our country. **Case report:** A 30 year-old female patient, that in the context of a preventive health examination, presents a mediastinal solid mass in the right hemithorax, in the thorax radiography. The lesion of 8 cm x 7 cm x 2.4 cm was surgically removed. Histology shows a lesion compatible with pleural adenomatoid tumor and immunohistochemistry is positive for markers such as calretinin and cytokeratin 5/6. **Discussion:** The pleural adenomatoid tumor is an uncommon neoplasm with benign behavior and several differential diagnoses.

Key words: Adenomatoid tumor, pleura, calretinina.

Resumen

Introducción: Los tumores adenomatoideos son neoplasias benignas poco frecuentes, cuya ubicación pleural es de muy baja frecuencia, reportándose sólo 4 casos a nivel mundial y ninguno nacional a la fecha. Las muestras parciales en biopsia intraoperatoria, en ausencia de antecedentes clínico-radiológicos puede representar un desafío diagnóstico. **Caso clínico:** Paciente de sexo femenino, 30 años que en contexto de un examen preventivo de salud se pesquiza en la radiografía de tórax una masa sólida mediastínica en hemitórax derecho. Se extirpa lesión redondeada de 8 cm. La histología muestra lesión compatible con tumor adenomatoide pleural y la inmunohistoquímica positividad para marcadores Calretinina y Citoqueratina 5/6. **Discusión:** El tumor adenomatoide pleural en una entidad poco frecuente, de comportamiento benigno, con diversos diagnósticos diferenciales.

Palabras clave: Tumor adenomatoide, pleura, calretinina.

*Recibido el 6 de octubre de 2014 y aceptado para publicación el 10 de febrero de 2015.

Los autores no refieren conflictos de interés.

Correspondencia: Dr. Iván Gallegos M.
igallegosmendez@gmail.com
igallegos@hcuch.cl

Introducción

Los tumores adenomatoideos son neoplasias benignas poco frecuentes^{1,2}. Estudios ultraestructurales e inmunohistoquímicos apoyan el origen mesotelial de estas neoplasias^{3,4}. En general son tumores únicos y se ubican principalmente en el tracto genital femenino y masculino; sin embargo, también han sido descritos en localizaciones extra-genitales, las que incluyen glándula suprarrenal, corazón, omento, pleura, linfonodos y páncreas^{1,3,5}. En la literatura se han reportado sólo cuatro casos de tumores adenomatoideos de localización pleural¹. El objetivo de este trabajo es presentar el primer caso de tumor adenomatoide pleural reportado en Chile y Sudamérica, y el de mayor tamaño reportado hasta el momento a nivel mundial en la literatura científica clásica.

Caso clínico

Paciente de sexo femenino, 30 años de edad. Sin antecedentes mórbidos de relevancia, sin antecedentes de tabaquismo ni exposición a asbesto. Se realiza exámenes de medicina preventiva, dentro de los cuales destaca radiografía de tórax donde se pesquisa una masa sólida de 7 x 6 cm en hemitórax derecho en relación al ángulo mediastínico-frénico. Se complementa el estudio con una tomografía axial computada (TC), la cual confirma la presencia de una masa paracardiaca derecha, en estrecho contacto con la pleura parietal, de bordes netos, crecimiento expansivo, aspecto homogéneo, sin adenopatías asociadas. El examen físico se consigna dentro de

límites normales. Se diagnostica masa mediastínica en estudio, probable tumor fibroso pleural.

Se realiza toracotomía derecha y resección tumoral con biopsia intraoperatoria, la que es informada como tumor de aspecto benigno, sugerente de tumor adenomatoide. El resto de la masa tumoral se procesa para estudio histopatológico diferido.

La macroscopia evidencia una lesión nodular de 8 cm de longitud, 7 cm de ancho y 2,4 cm de espesor y peso de 113,8 g. La superficie externa se describe lisa, de color blanquecino y forma abollonada. Al corte, se observa sólido, homogéneo, blanquecino, de superficie arremolinada, sin áreas de necrosis ni hemorragia.

A la histología, mediante tinción de Hematoxilina-Eosina y PAS, se describe una proliferación de estructuras pseudovasculares revestidas por células cúbicas, monomorfas, con amplio citoplasma eosinófilo, núcleo redondo y nucléolo prominente. Algunas células se distribuyen en forma individual y presentan un citoplasma vacuolado. No se observan mitosis ni atipias significativas. Entre la proliferación hay tejido fibroblástico denso, de aspecto normotípico (Figura 1).

Se complementa el estudio con técnicas de inmunohistoquímicas. La Calretinina resultó positivo intenso con patrón de tinción nuclear y citoplasmático (Figura 2); la Citoqueratina 5/6 positiva intensa con patrón de tinción citoplasmático (Figura 3), Ber-Ep4; con resultado negativo y Ki67 con positividad en menos del 5% de las células (Figura 4).

Basado en antecedentes clínicos, imagenológicos y el estudio anatomopatológico, se diagnostica como Tumor Adenomatoide Pleural con margen quirúrgico no comprometido.

Figura 1. Tumor dispuesto en estructuras pseudovasculares o pseudoglandulares inmersas en estroma fibroso, sin atipias.

Figura 2. Tinción positiva para Calretinina en citoplasma y núcleos.

Figura 3. Tinción positiva citoplasmática para Citoqueratina 5/6.

Figura 4. Tinción nuclear para Ki67 en menos del 5% de las células.

Discusión

Los Tumores Adenomatoides son neoplasias poco frecuentes, de carácter benigno, generalmente únicas y de crecimiento lento^{1,2}. El origen mesotelial de estos tumores estaría basado en su histología, inmunofenotipo y ultraestructura³. No se han encontrado factores ambientales ni comorbilidades que predispongan a su aparición. Se ubican principalmente en el tracto genital femenino (útero, trompas de falopio y ovario) y tracto genital masculino (epidídimo, conductos eyaculadores, cordón espermático, túnica albugínea, túnica vaginal, parénquima testicular y próstata). Otras localizaciones extragenitales son raras e incluyen glándulas suprarrenales, corazón, omento, pleura, linfonodos y páncreas⁶. Se presentan principalmente entre la tercera y quinta década de vida, como formaciones nodulares bien delimitadas, de consistencia firme, a veces quísticas, de color blanquecino, gris o amarillento. La gran mayoría no encapsulada y en general menores a 3 cm de tamaño. Histológicamente, independiente de la localización, los tumores adenomatoides están compuestos por dos componentes: un componente epitelial, constituido por células aplanadas o cúbicas con citoplasma vacuolado y un componente fibroconectivo denso. No se observan mitosis, pleomorfismo ni atipias nucleares y es muy rara la presencia de calcificación, necrosis o hemorragia. Se describen 4 patrones histológicos:

1) Angiomatoide: formación de espacios pseudo-vasculares revestidos por células planas o cúbicas bajas, sin elementos sanguíneos, con descamación luminal aislada de células de aspecto mesotelial; 2) Adenoide: formaciones de aspecto glandular formado por células cúbicas altas; 3) Formaciones sólidas: compuestas por cordones de células epiteli-

des sin patrón específico y 4) Quístico: formaciones quísticas, habitualmente subserosas, uni o multiloculares revestidas por células cúbicas o planas de aspecto mesotelial^{7,8}. El estudio inmunohistoquímico incluye positividad en porcentajes variables para: Citoqueratina AE1/AE3, Citoqueratina 5/6, Calretinina, D2-40, WT-1 y CAM 5.2^{1,6,8}.

El tratamiento es quirúrgico con resección de la neoplasia: no existen reportes hasta la fecha de recidiva tumoral.

Han sido reportados tan sólo cuatro casos en la literatura médica hasta el 2009. El promedio de edad es de 58 años (rango de 47 a 61 años) con predominio femenino 3:1 y de localización principalmente en la pleura visceral 3:1. El tamaño promedio fue de 1,07 cm (0,5-2,5 cm). Las comorbilidades observadas fueron: cáncer pulmonar escamoso en 2 pacientes, uno de ellos además con antecedente de cáncer de mama, otro paciente con cáncer de esófago y el restante con Elastofibroma dorsi¹.

Este caso presenta un tumor adenomatoide pleural de mayor tamaño y en el paciente más joven reportado. El subtipo histológico observado fue adenomatoide, el estudio inmunohistoquímico no difiere del descrito en la literatura, concordando con el diagnóstico.

El conocimiento de la macroscopia o radiología es necesaria para orientar el diagnóstico con respecto a sus diferenciales. En el contexto de una masa bien delimitada, los diagnósticos diferenciales incluyen sarcoma sinovial, mesotelioma maligno localizado, ambos son neoplasia con un componente fusado y epitelial con mitosis y atipia. Macroscópicamente también pueden presentar quistes y áreas de necrosis y hemorragia. Si la localización es mediastínica una neoplasia tímica es una alternativa. La neoplasia benigna más frecuente de la pleura es el Tumor

Fibroso Solitario, por lo cual constituye la principal hipótesis diagnóstica radiológica en este contexto, sin embargo, carece del componente epitelioide del tumor adenomatoide en la histología. Además en ausencia de datos macroscópicos, una muestra parcial puede simular un adenocarcinoma por la presencia de pseudoglándulas irregulares en un estroma fibroso, con importantes implicaciones clínicas. Por ende, ante la presencia de neoplasias torácicas bien delimitadas, la comunicación clínico-radiológico-patológica es fundamental.

Referencias

1. Minato H, Nojima T, Kurose N, Kinoshita E. Adenomatoid tumor of the pleura. *Pathology International* 2009;59:567-71.
2. Guinee D, Allen TC. Primary Pleural Neoplasia: Entities Other Than Diffuse Malignant Mesothelioma. *Archives of Pathology & Laboratory Medicine* 2008;132:1149-70.
3. Isotalo PA, Nascimento AG, Trastek VF, Wold LE, Cheville JC. Extragenital Adenomatoid Tumor of a Mediastinal Lymph Node. *Mayo Clinic Proceedings* 2003;78:350-4.
4. Delahunt B, Eble JN, King D, Bethwaite PB, Nacey JN, Thornton A. Immunohistochemical evidence for mesothelial origin of paratesticular adenomatoid tumour. *Histopathology* 2000;36:109-15.
5. Kaplan M, Tazelaar H, Hayashi T, Schroer K, Travis W. Adenomatoid Tumors of the pleura. *The American Journal of Surgical Pathology* 1996;20:1219-23.
6. Sangoi AR, McKenney JC, Schwartz EJ, Rouse RV, Longacre TA. Adenomatoid tumors of the female and male genital tracts: a clinic pathological and immunohistochemical study of 44 cases. *Modern Pathology* 2009;22:1228-35.
7. Rappa F, Ternullo MP. Adenomatoid Tumor. *Pathologica* 2006;98:164-6.
8. Conteras ML, Contreras SL, Plass I, Ricci P. Tumores Adenomatoides Uterinos: Estudio Anátomo-Patológico e Inmunohistoquímico de 32 casos. *Rev Chil Obst y Gin.* 2009;74:372-8.