



CARTAS CIENTÍFICAS

Seudotumor inflamatorio hepático: a propósito de un caso



Inflammatory pseudotumor of the liver: A propos of a case

Elseudotumor inflamatorio es una enfermedad relativamente rara, de etiología incierta, caracterizada por la infiltración crónica de células inflamatorias y área de fibrosis¹. También se conoce como tumor miofibroblástico inflamatorio o granuloma de células plasmáticas^{1,2}. Se produce más comúnmente en el pulmón, pero se puede encontrar en otras localizaciones, incluyendo la médula espinal, los ojos, el bazo, los ganglios linfáticos, el tejido blando y el hígado¹. Elseudotumor inflamatorio hepático representa el 8% de losseudotumores inflamatorios extrapulmonares¹. La etiología y la patogénesis continúan siendo desconocidas, aunque la obstrucción crónica y estasis parecen ser factores etiológicos importantes. Generalmente se considera como una condición reactiva-inflamatoria no neoplásica². Otras causas postuladas incluyen la etiología infecciosa y autoinmune¹⁻³. La mayoría de pacientes suelen presentar fiebre y dolor abdominal^{3,4}. Comúnmente se presentan como masas grandes, solitarias, de predominio en el lóbulo derecho, aunque la multicentricidad también se ha descrito¹. La tomografía computarizada (TC) suele revelar lesiones con realce de contraste variable, pudiendo presentar carácter hipovascular⁴. En la resonancia magnética nuclear (RMN) se manifiestan hipointensas en T1 e hiperintensas en T2^{2,4}. Las manifestaciones clínicas y los hallazgos de imagen son similares a los de un tumor maligno, particularmente colangiocarcinoma, metástasis o hepatocarcinoma¹, con la excepción del comportamiento biológico benigno y propiedades de regresión espontánea que se han descrito después del tratamiento conservador con antibióticos o AINE^{4,5}. También se debe diferenciar de lesiones quísticas, tales como abscesos hepáticos que muestra la licuefacción incompleta y granulación¹. Ante la sospecha deseudotumor inflamatorio, la importancia de la biopsia percutánea con aguja gruesa (BAG) para el diagnóstico se ha enfatizado⁴.

El protocolo de tratamiento para estosseudotumores continua siendo controvertido, debiendo considerarse resección quirúrgica cuando hay ausencia de mejoría o incertidumbre diagnóstica^{4,6}.

Presentamos el caso de un varón de 57 años con antecedentes de hipertensión arterial, cardiopatía isquémica revascularizada con 2 *stents* e hipercolesterolemia, que ingresó por cuadro clínico de 2 meses de evolución de pérdida de peso, fiebre intermitente, sudoración profusa nocturna y episodios de dolor abdominal. A la exploración física únicamente destacaba hepatomegalia. Los hallazgos de laboratorio revelaron leucocitosis (14.200 cél/ml), anemia moderada (hemoglobina 10,7 g/dl), colestasis disociada (FA 212 U/l, GGT 288 U/l) y reactantes de fase aguda elevados (VSG 99 mm/h, PCR 136,9 mg/dl). Los marcadores tumorales (AFP, CEA y CA 19.9) fueron normales y las serologías de virus Epstein-Barr, *Coxiella*, *Borrelia*, *Rickettsia* y hepatitis A, B y C resultaron negativas. Se completó el estudio con TC abdominal, identificándose una lesión focal hepática heterogénea de 8 cm en lóbulo izquierdo (fig. 1a), con trombosis de rama portal y adenopatías. En la ecografía con contraste la lesión mostraba pérdida de señal en fases tardías, y en la RMN la lesión se identificaba iso-intensa en T2 (fig. 1b), y discretamente hipointensa en T1, con zonas de aspecto quístico-necrótico y edema perilesional, con captación homogénea tras administración de contraste, sugiriendo lesión de naturaleza inflamatoria sin poder descartarse origen tumoral.

Debido a estos hallazgos, se realizó BAG guiada por TC con diagnóstico anatomopatológico sugestivo deseudotumor inflamatorio (fig. 2) con vimentina+, AML+, desmina-, CD68-, ALK-, sin restricción de cadenas ligeras y un bajo índice proliferativo (15%).

Se decidió tratamiento conservador con antibioterapia (amoxicilina/ácido clavulánico 1.000/62,5 mg, 2 comprimidos cada 12 h) y seguimiento. El paciente presentó evolución favorable, con normalización de la colestasis y corrección de la anemia. Al mes, la TC mostró reducción de la lesión al 50%, y a los 6 meses esta casi ha desaparecido, continuando el paciente asintomático (fig. 3).

La TC y la RMN proporcionan claves para el diagnóstico en pacientes con masas hepáticas y marcadores

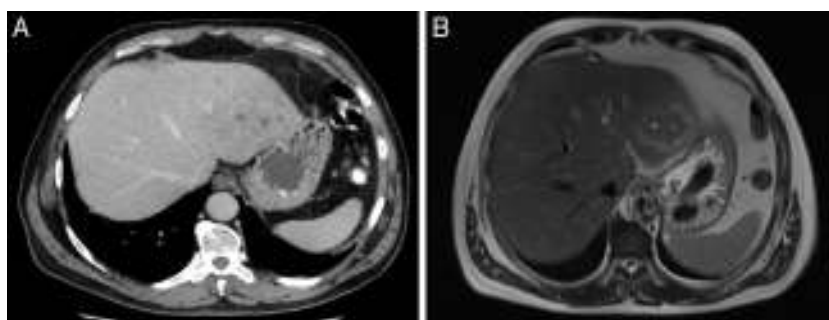


Figura 1 A) TC abdominal. Lesión hepática de 8 cm en los segmentos II y III, de densidad heterogénea, con zonas de menor densidad confluentes en su interior. B) RMN de hígado. T2 donde se observa lesión isointensa en los segmentos II y III, con zonas de aspecto quístico-necrótico en su interior y edema perilesional.

tumorales normales, sin embargo, debido a la falta de hallazgos patognomónicos, la sospecha clínica y el diagnóstico histológico son necesarios para un diagnóstico preciso¹. Los pseudotumores inflamatorios del hígado tienen buen pronóstico con tratamiento conservador. El diagnóstico histológico activo con BAG está garantizado y debido a la posibilidad de regresión espontánea, deben evitarse procedimientos quirúrgicos innecesarios^{1,4}. Es posible que la coexistencia de malignidad a veces no se descarte, por lo que no se recomienda utilizar de forma rutinaria la BAG si existe alta sospecha de que una lesión es maligna, ya que no está exenta de riesgos⁴. Se han descrito sangrado, siembra maligna en la trayectoria de la aguja e infecciones secundarias^{4,6}. La resección quirúrgica se

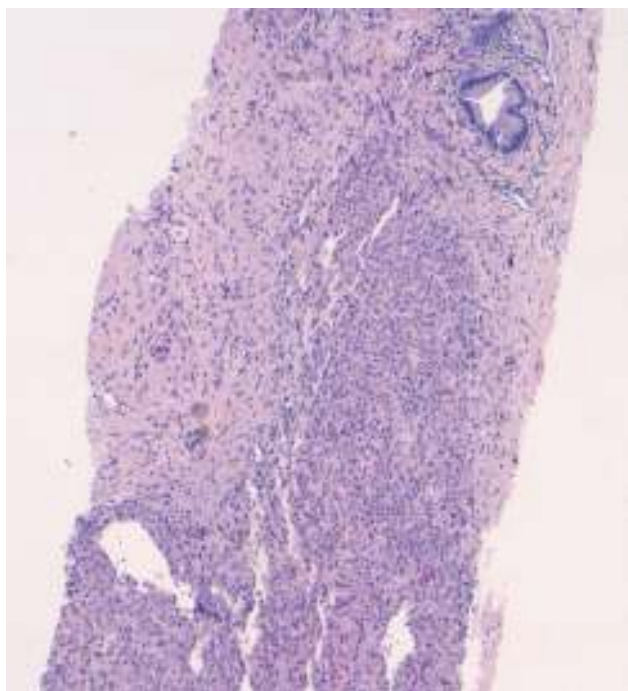


Figura 2 Hígado a bajo aumento con presencia de áreas fibróticas que han sustituido el parénquima hepático y focos inflamatorios (H&E, $\times 8$).

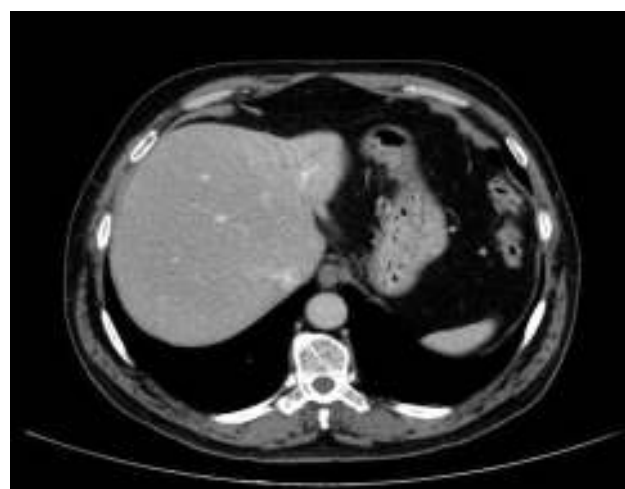


Figura 3 TC abdominal de control a los 6 meses. Importante disminución, casi desaparición, de la lesión en el lóbulo hepático izquierdo.

considera necesaria cuando los síntomas continúan a pesar del tratamiento médico, la lesión aumenta de tamaño, el tumor comprime estructuras vitales, existen factores de riesgo o hay incertidumbre diagnóstica⁶. En este grupo de pacientes, la hepatectomía minimiza el riesgo de complicaciones relacionada con la biopsia y puede proporcionar mejores resultados a largo plazo².

Financiación

Los autores declaran no haber recibido ninguna financiación.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Park JY, Choi MS, Lim YS, Park JW, Kim SU, Min YW, et al. Clinical features, image findings, and prognosis of inflammatory

- pseudotumor of the liver: A multicenter experience of 45 cases. *Gut Liver*. 2014;8 Suppl 1:S58–63.
2. Goldsmith PJ, Loganathan A, Jacob M, Ahmad N, Toogood GJ, Lodge JP, et al. Inflammatory pseudotumours of the liver: A spectrum of presentation and management options. *Eur J Surg Oncol*. 2009;35 Suppl 12:S1295–8.
 3. Patnana M, Sevrakov AB, Elsayes KM, Viswanathan C, Lubner M, Menias CO. Inflammatory pseudotumor: The great mimicker. *AJR Am J Roentgenol*. 2012;198 Suppl 3:S217–27.
 4. Ke Q, Fan L, Duan X, He Z, Zheng S. Inflammatory pseudotumor mimicking primary hepatic malignant tumor with hepatitis B virus-related cirrhosis: A case report. *Oncol Lett*. 2013;6 Suppl 2:S550–2.
 5. Chen CB, Chou CT, Hsueh C, Lee KW, Chen YL. Hepatic inflammatory pseudotumor mimicking hepatocellular carcinoma. *J Chin Med Assoc*. 2013;76 Suppl 5:S299–301.

6. Calomeni GD, Ataíde EB, Machado RR, Escanhoela CA, Costa LB, Boin IF. Hepatic inflammatory pseudotumor: A case series. *Int J Surg Case Rep*. 2013;4 Suppl 3:S308–11.

Lourdes Guerrero Puente*, María Muñoz García-Borrue, Pilar Barrera Baena y Manuel de la Mata García

Unidad de Gestión Clínica de Aparato Digestivo, Hospital Universitario Reina Sofía, Córdoba, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: lourdesguerrerop@hotmail.com (L. Guerrero Puente).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2015.06.006>

Perforación intestinal secundaria a linfoma T entérico en un paciente sin intolerancia al gluten



Intestinal perforation secondary to T-enteric lymphoma in a patient without celiac disease

La enteropatía asociada a linfoma de células tipo T es un linfoma extranodal extremadamente raro asociado a mal pronóstico. La organización mundial de la salud (OMS) lo clasifica en 2 tipos¹: el tipo I se asocia a celiaquía y es el más frecuente, en cambio, el tipo II es muy raro en los países occidentales y no se relaciona con la enfermedad celíaca. Característicamente, a diferencia del tipo I presenta positividad para CD8 y CD56, y reordenamiento clonal del gen del receptor de células T (TCR)^{2,3}.

Debido a su gran agresividad, una forma frecuente de presentación es la perforación intestinal.

Evaluamos el caso de un linfoma de células T asociado a enteropatía tipo II, en un paciente sin intolerancia al gluten que comienza como cuadro de abdomen agudo quirúrgico.

Varón de 58 años con antecedentes de pérdida de peso de 11 kg en 2 meses, que acude a urgencias por un cuadro de dolor abdominal brusco de 1 h de evolución, y que a la exploración presentaba signos de irritación peritoneal generalizada.

En la analítica sanguínea destacaba, elevación de PCR 16,6 mg/l (normal <10 mg/l), lactato 1,8 mmol/l, $12,3 \times 10^9$ /l leucocitos (normal 11×10^9 /l) con 72,5% de neutrófilos (normal <70%).

Se le solicitó tomografía computarizada (TC) que apoyó la sospecha de perforación de víscera hueca por posible tumoración ileal, por lo que se indicó tratamiento quirúrgico urgente (figs. 1A y B).

Intraoperatoriamente se observó la presencia de un nódulo ileal blanquecino de 5×3 cm, junto con una perforación intestinal adyacente al mismo (fig. 1C). Se realizó resección intestinal de aproximadamente 30 cm, asociando su mesenterio y parte del epiploon mayor.

El estudio histológico mostró una proliferación linfoide monomorfa que se extendía desde la mucosa con infiltración de las criptas hasta la grasa perivisceral con invasión de la totalidad de la pared (figs. 2A y B). Los linfocitos eran de pequeño-mediano tamaño, con escaso citoplasma y nucléolo poco prominente (fig. 2C) sin componente inflamatorio acompañante, ni presencia de células grandes. Inmunohistoquímicamente se observó expresión de marcadores linfoides de tipo T citotóxico (CD3, CD7, CD8, CD56), (fig. 2D) sin expresión de; CD4, CD20, CD5, CD30, CD23, ciclina D1, bcl-2, bcl-6, SOX11 ni EBER. El índice de proliferación era muy elevado (Ki-67, 80%) (fig. 2E). En la mucosa ileal adyacente se observó un incremento de linfocitos intraepiteliales sin atrofia vellositaria. Las adenopatías resecadas eran de carácter reactivo.

Se realizó estudio molecular constatándose reordenamiento monoclonal para TCR gamma, confirmando la estirpe T (fig. 2F).

Estos datos anatomopatológicos junto con la ausencia de celiaquía, establecieron el diagnóstico de linfoma intestinal de células T asociado a enteropatía (variante monomorfa tipo II de la OMS).

El paciente recibió tratamiento quimioterápico, con 6 ciclos del esquema CHOP (adriamicina, vincristina, ciclofosfamida y prednisona). A los 12 meses el paciente estaba libre de enfermedad.

La enteropatía asociada a linfoma de células tipo T, es un linfoma primario extranodal, que tiene su origen en los linfocitos T intraepiteliales de la mucosa intestinal.

En 1937 Fairley y Mackie describieron, en pacientes con enfermedad celíaca, la presencia de linfoma intestinal⁴, pero fue O'Farrelly et al. en 1986 quienes acuñaron el término de enteropatía asociada a linfoma tipo T⁵.

Representa menos del 10-20% de los linfomas del tracto gastrointestinal². La incidencia en países occidentales es del 0,5/1 por millón de habitantes y año⁶. El diagnóstico se sitúa alrededor de los 60 años, y sin diferencias entre sexos⁷. La localización más frecuente es a nivel del yeyuno proximal, seguido del resto de intestino delgado, estómago, colon y recto².