

F. Tresserra,
M. Monzón^a,
P.J. Grases,
M. Paraira^a,
J. Feua,
L. López-Marín^b,
A. Fernández-Cid^b

Hiperplasia ductal esclerosante subareolar de la mama: presentación de ocho casos

Subareolar sclerosing ductal hyperplasia of the breast: report of eight cases

SUMMARY

Subareolar sclerosing duct hyperplasia is a clinicopathologic entity showing similar features as nipple adenoma but localized in the subareolar area without involvement of the nipple.

Clinical, radiologic, ultrasonographic, cytologic and pathologic findings of eight cases of subareolar sclerosing duct hyperplasia have been reviewed. Bloody nipple discharge and skin retraction were the most frequent signs of the disease. Two cases showed radiologic, ultrasonographic or cytologic changes suspicious of malignancy. None of the cases displayed nipple involvement. Papillomatosis was the most frequent pathologic pattern. Sclerosing and adenotic patterns were infrequent but both accounted for a pre-surgical diagnosis of malignancy.

Subareolar sclerosing duct hyperplasia is a distinct clinicopathologic entity from nipple adenoma that can be clinically, radiologically or cytologically confused with breast cancer.

Servicio de Anatomía Patológica.
^aDepartamento de Diagnóstico por la Imagen y ^bDepartamento de Obstetricia y Ginecología. Instituto Universitario Dexeus. Barcelona.

Correspondencia:
Dr. F. Tresserra.

Servicio de Anatomía Patológica.
Instituto Universitario Dexeus.
Pº de la Bonanova, 69.
08017 Barcelona.
Correo electrónico: 25865ftc@comb.es

Palabras clave:

Hyperplasia ductal esclerosante subareolar. Adenoma del pezón. Lesiones benignas de la mama.

Key words:

Subareolar sclerosing duct hyperplasia. Nipple adenoma. Benign breast lesions.

INTRODUCCIÓN

La Organización Mundial de la Salud, en su clasificación de los tumores de la glándula mamaria, define al adenoma del pezón como "Un tumor epitelial benigno que crece en los conductos del pezón y que muestra una proliferación intraductal que se acompaña en estadios avanzados de un componente tubular... Esta lesión debe diferenciarse de pequeños papilomas que se localizan en la región subareolar"¹. Para designar esta patología del pezón se han utilizado términos tales como adenoma papilar, papillomatosis florida, y adenosis o adenomatosis erosiva²⁻⁴. Sin embargo existen lesiones de características morfológicas similares que se localizan en la región sub o para areolar sin afectar al pezón, que Rosen y col.⁵ han denominado hiperplasia ductal

esclerosante subareolar (HDES)⁵. En ellas destaca la presentación clínica con derrame hemático por el pezón pero a diferencia del adenoma del pezón, no hay ni erosión ni ulceración.

Se revisan las características clínicas, radiológicas, eco-gráficas y anatomo-patológicas de ocho casos de HDES.

MATERIAL Y MÉTODOS

De un total de 20 casos diagnosticados en el Servicio de Anatomía Patológica de adenoma del pezón desde mayo de 1990 hasta diciembre de 2001, ocho se localizaron en la región subareolar sin estar en contacto con el pezón, siendo catalogados como hiperplasia ductal esclerosante subareolar. Se han revisado los datos clíni-

TABLA 1
CARACTERÍSTICAS CLÍNICAS, RADIOLÓGICAS, ECOGRÁFICAS Y EVOLUCIÓN DE CADA UNO DE LOS CASOS

Caso	Edad	Consulta	Exploración	Mamografía	Ecografía	Citología	Tamaño (cm)	Localización	Evolución
1	40	Retracción de piel	Nódulo 2 cm	Pseudonodular	Placa	Proceso papilar	0,6	Izquierdo (CIE)	SEE (1a)
2	49	Revisión	Nódulo 2 cm	Pseudonodular	Nódulo sólido-quístico	Proceso papilar	1,5	Izquierdo (UCS)	SEE (1,5a)
3	40	Derrame/Nódulo	Derrame	Aumento densidad	Microquistes	Benigno	0,7	Izquierdo (CIE)	SEE (2a)
4	47	Derrame	Derrame	Aumento densidad	Nódulo sólido	Benigno	0,9	Derecho (UCE)	SEE (3a)
5	51	Retracción de piel	Nódulo 1,5 cm	Zona estrellada	Zona desestructurada	Células atípicas	0,6	Derecho (CSE)	SEE (6a)
6	39	Nódulo	Nódulo 1 cm	Sin alteraciones	Nódulo sólido	Sospecha malignidad	0,8	Derecho (CSE)	SEE (3m)
7	58	Derrame	Derrame	Pseudonodular	Quiste con ecos	Benigno	1	Izquierdo (CIE)	SEE (1,5a)
8	31	Nódulo	Nódulo 1,6 cm	No efectuada	Nódulo sólido	Benigno	0,9	Izquierdo (CI)	SEE (10,5a)

CIE: cuadrante inferior externo; UCS: unión de cuadrantes superiores; UCE: unión de cuadrantes externos; CSE: cuadrante superior externo; CI: cuadrantes internos; SEE: sin evidencias de enfermedad; a: años; m: meses.

cos, radiológicos, ecográficos, citológicos y anatopatológicos de estos casos y se ha seguido su evolución.

RESULTADOS

La edad media de las pacientes con HDES fue de $44 \pm 8,4$ años (31-58) (tabla 1). En cinco casos la lesión se encontraba en la mama izquierda y en tres en la derecha. Todas las lesiones se hallaban en localización subareolar sin afectar el pezón, existiendo una predominancia por la región externa de la areola. El motivo de consulta fue por derrame serohemático por el pezón en tres pacientes, retracción de la piel periareolar en dos, palpación de un nódulo en dos y la restante estaba asintomática, descubriendose la lesión en el transcurso de una revisión ginecológica.

La exploración clínica reveló un derrame serohemático por el pezón en tres casos, palpándose un nódulo en los cinco casos restantes. En ninguna paciente se constató ulceración de la piel y el pezón estaba intacto en todas. La exploración radiológica, en tres ocasiones, demostró la presencia de una imagen pseudonodular. En dos casos existía un aumento de densidad retroareolar y solo en una paciente se observó una imagen desestructurada con sospecha de malignidad. Otra paciente no mostró alteraciones mamográficas y en otra la mamografía no se efectuó por encontrarse en el segundo trimestre de la

gestación. Ecográficamente la lesión se diagnosticó como nódulo sólido en cuatro ocasiones, como quiste endocrino en dos, como placa en una y otra presentó una zona desestructurada. El estudio citológico resultó benigno en cuatro casos, proceso papilar en dos, se constataron células atípicas un caso y el restante se diagnosticó como proceso papilar sospechoso de malignidad. Atendiendo a las exploraciones complementarias, seis de los casos se consideraron benignos y dos como probables lesiones malignas. Todas ellas fueron intervenidas quirúrgicamente mediante la excisión completa de la lesión.

Anatomopatológicamente el tamaño medio de las lesiones fue de $0,8 \pm 0,2$ cm (0,6-1,5). El patrón histológico predominante fue el de papilomatosis en seis casos (fig. 1). En ellos se observó la presencia de múltiples proyecciones papilares intraductales revestidas por una doble hilera epitelial con escasa o nula esclerosis del estroma. Todas ellas eran lesiones bien circunscritas. En dos de estos casos se observaron ductos con hiperplasia intraductal no atípica, apreciándose además en estos casos metaplasia apocrina en uno y escamosa focal del epitelio de revestimiento en el otro. Otra presentó un patrón de papilomatosis esclerosante o esclerosis radial (fig. 2) (caso 5), mostrando una lesión de contornos infiltrantes con marcada esclerosis del estroma coexistiendo con una proliferación epitelial papilar, sólida o tubular con hiperplasia intraductal no atípica multifocal. El caso restante (caso 6) exhibía un patrón adenósico (fig. 3) de

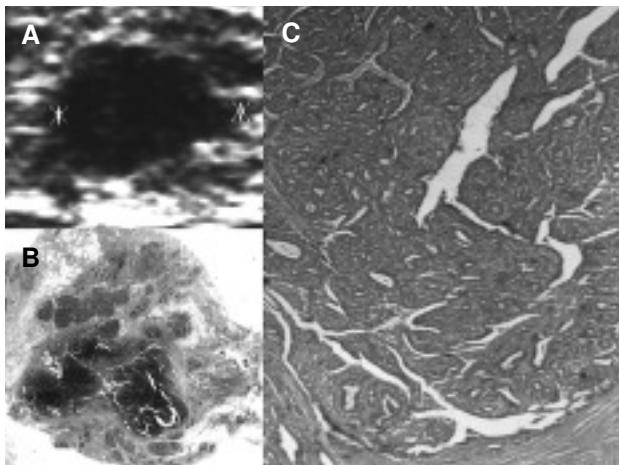


Fig. 1. A) Imagen pseudonodular hipoeclégena de 8 mm. B) Lesión bien delimitada de patrón papilomatoso constituida por conductos dilatados que contienen proyecciones papilares (hematoxilina-eosina $\times 1$). C) Frondas papilares intraductales revestidas por una doble hilera celular (hematoxilina-eosina $\times 40$) (caso 1).

configuración lobular, bien delimitada, con expansión lobillar y esclerosis estromal. En ninguna ocasión se observó necrosis ni signos histológicos de malignidad.

Tres pacientes presentaban además de la HDES, mastopatía fibroquística en la mama adyacente y una un papiloma. La paciente en la que existía sospecha radiológica de malignidad y atipias celulares citológicas presentó una lesión con patrón esclerosante y en el caso con diagnóstico de sospecha de malignidad citológicamente se constató un patrón adenósico. Todas las pacientes con clínica de derrame mostraron un patrón papilomatoso. La paciente con patrón esclerosante mostró retracción de la piel y en la de patrón adenósico se palpó un nódulo.

La evolución de todas las pacientes ha sido satisfactoria sin haberse observado recidivas tras un seguimiento que varía entre tres meses y 10 años y medio.

DISCUSIÓN

En una revisión de 51 casos de papilomatosis florida del pezón, Rosen et al⁶ encontraron 12 casos en los que la lesión se localizaba en la región subareolar sin afectar al pezón, definiéndolas como una entidad clínico patológica distinta y denominándola HDES⁵. La edad media de estas pacientes era de 46 años, mostrando tres de ellas derrame hemático por el pezón y en alguna, no se especifica el número, el diagnóstico radiológico fue de sospecha de malignidad. El tamaño medio de las lesiones fue de 1,2 cm (0,6-2,0).

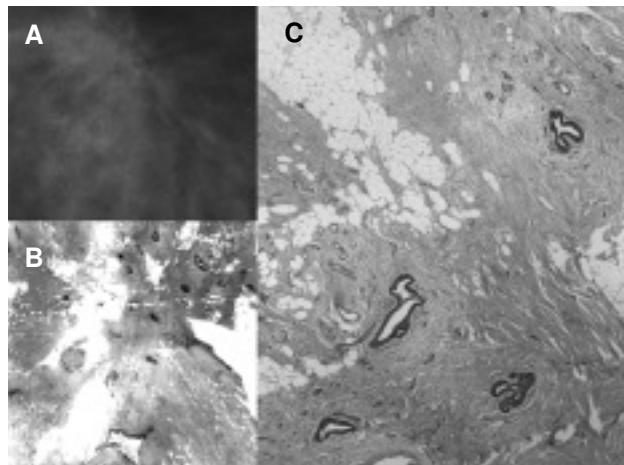


Fig. 2 A) imagen estrellada. B) Lesión estrellada con marcada esclerosis en el centro con patrón de papilomatosis esclerosante o esclerosis radial (hematoxilina-eosina $\times 1$). C) Conductos revestidos por una doble hilera celular rodeados de un estroma con marcada esclerosis (hematoxilina-eosina $\times 40$) (caso 5).

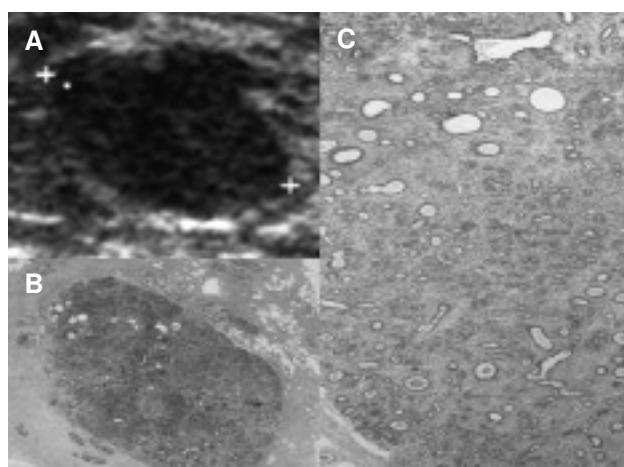


Fig. 3 A) Nódulo sólido isoecogénico de 11 mm. B) Lesión de contornos bien circunscritos con patrón adenósico (hematoxilina-eosina $\times 1$). C) Se observa una proliferación de conductos revestidos por una doble hilera celular con discreta esclerosis del estroma (hematoxilina-eosina $\times 40$) (caso 6).

En nuestros casos hemos podido observar que el patrón anatomo-patológico de la HDES es similar al que presenta el adenoma del pezón^{2,6}, siendo el patrón papilomatoso circunscrito el más frecuente y el que habitualmente se asocia a derrame hemático por el pezón^{2,5}. Los patrones esclerosante y adenósico son menos frecuentes, sin embargo pueden dar signos clínicos, radiológicos, ecográficos o citológicos sospechosos de malignidad⁷, como ha sucedido en dos de nuestros casos, por

tratarse de lesiones mal delimitadas y arquitecturalmente más complejas. Incluso se ha descrito la presencia de diferenciación condroide en el estroma⁸. La presencia de metaplasia apocrina o escamosa, que constituyen hallazgos excepcionales en el adenoma del pezón^{9,10}, no han sido descritos en la HDES^{2,5}; en nuestra serie, hemos observado estos cambios, cada uno en un caso.

A diferencia del adenoma del pezón en el que se han descrito tanto asociaciones con cáncer sincrónico en la mama ipsi o contralateral como transformación maligna^{2,4,6}, no se ha observado ningún caso de HDES asociado a carcinoma infiltrante, tan solo una paciente mostró focos de carcinoma intraductal y otra focos de carcinoma intraductal y de lobulillar *in situ*, coexistiendo con la HDES^{5,12}. Existe otro caso en el que el epitelio de revestimiento ductal presentó atipia severa⁹. Así como el adenoma del pezón se ha visto en hombres^{13,14}, e incluso afectando a pezones supernumerarios¹⁵, la HDES sólo se ha descrito en mujeres y en localización habitual de la glándula mamaria.

El tratamiento adecuado de la HDES es la excisión local de la lesión^{2,5}, aunque debido a su patrón complejo radiológico o a la presencia de retracción cutánea, hay casos que se han tratado mediante mastectomía radical⁵. Aunque existan dudas sobre la benignidad del proceso o no, es aconsejable un estudio anatopatológico diferido de la lesión debido a su complejidad arquitectural.

La HDES es una lesión benigna de características similares al adenoma del pezón pero que se localiza en la región subareolar sin afectar al pezón. Clínicamente puede presentarse a modo de un derrame hemático o retracción de la piel y las exploraciones complementarias pueden ser sugestivas de malignidad, sin embargo hasta el momento no se ha descrito su asociación a cáncer infiltrante ni malignización con lo que la excisión local es curativa.

RESUMEN

La hiperplasia ductal esclerosante subareolar es una entidad clinicopatológica con características similares a las del adenoma del pezón pero localizada en la región subareolar sin afectarlo.

Se revisan las características clínicas, radiológicas, anatopatológicas y citológicas de ocho casos de hiperplasia ductal esclerosante subareolar.

La forma clínica de presentación más frecuente cursó con derrame hemático por el pezón o retracción de la piel. Dos casos presentaron sospecha radiológica, eco-gráfica o citológica de malignidad. En ningún caso se

constató afectación del pezón. El patrón anatopatológico habitual fue el de papilomatosis, siendo los patrones esclerosante o adenósico los que se prestaron a una interpretación errónea de malignidad antes del trámineto quirúrgico.

La hiperplasia ductal esclerosante es una entidad clinicopatológica benigna diferenciable del adenoma del pezón que en ocasiones puede ser confundida clínica, radiológica o citológicamente con una lesión maligna de la mama.

BIBLIOGRAFÍA

1. World Health Organization. Histological typing of breast tumours. International Histological Classification of tumours No. 2. Geneva: World Health Organization;1981:19.
2. Rosen PP, Oberman HA. Benign epithelial lesions. En: Atlas of tumor pathology. Tumors of the mammary gland. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1993:78-91.
3. Tavassoli FA. Diseases of the nipple. En: Pathology of the breast. Stamford: Appleton and Lange; 1999:741-51.
4. Perzin KH, Lattes R. Papillary adenoma of the nipple (florid papillomatosis, adenoma, adenomatosis). A clinicopathologic study. Cancer 1972;29:996-1002.
5. Rosen PP. Subareolar sclerosing duct hyperplasia of the breast. Cancer 1987;59:1927-30.
6. Rosen PP, Caicco JA. Florid papillomatosis of the nipple. A study of 51 patients, including nine with mammary carcinoma. Am J Surg Pathol 1986;10:87-101.
7. Fornage BD, Faroux MJ, Plout M, Bogomoletz W. Nipple adenoma simulating carcinoma. Misleading clinical, mammographic, sonographic, and cytologic findings. J Ultrasound Med 1991;10:55-7.
8. Rosen PP. Papilloma and related benign tumors. En: Rosen's breast pathology. Philadelphia: Lippincott Williams and Wilkins; 2001:94-6.
9. Doctor VM, Sirsat MV. Florid papillomatosis (adenoma) and other benign tumours of the nipple and areola. Br J Cancer 1971;25:1-9.
10. Taylor HB, Robertson AG. Adenomas of the nipple. Cancer 1965;18:995-1002.
11. Jones MW, Tavassoli FA. Coexistence of nipple duct adenoma and breast carcinoma: a clinicopathologic study of five cases and review of the literature. Mod Pathol 1995;8:633-6.
12. McDivitt RW, Stewart FW, Berg JW. Benign breast lesions. En Tumors of the breast. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1968:138-9.
13. Shapiro L, Karpas CM. Florid papillomatosis of the nipple. First reported case in a male. Am J Clin Pathol 1965;44:155-9.
14. Waldo ED, Sidhu GS, Hu AW. Florid papillomatosis of the male nipple after diethylstilbestrol therapy. Arch Pathol 1975;99:364-6.
15. Civatte J, Restout S, Delomenie DC. Adenomatose erosive sur mamelon surnuméraire. Ann Dermatol Venerol (Paris) 1977;104:777-779.