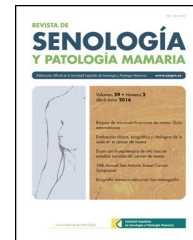




Revista de Senología y Patología Mamaria

www.elsevier.es/senologia



CASO CLÍNICO

Tumor miofibroblástico inflamatorio de la mama: presentación de caso y revisión de la literatura



Marcelo Chávez Díaz^{a,*}, Maria del Rosario Cueva Perez^a y Daniel Enrique Castro Vela^b

^a Servicio de Cirugía de Mamas, Piel y Partes Blandas, Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen, Lima, Perú

^b Departamento de Anatomía Patológica, Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen, Lima, Perú

Recibido el 21 de junio de 2019; aceptado el 15 de febrero de 2020

Disponible en Internet el 25 de marzo de 2020

PALABRAS CLAVE

Tumor miofibroblástico inflamatorio; Seudotumor inflamatorio; Tumoración mamaria; Mama

KEYWORDS

Inflammatory myofibroblastic tumour; Inflammatory pseudotumor; Breast tumours; Breast

Resumen El tumor miofibroblástico inflamatorio (TMI), forma parte del grupo de pseudotumores inflamatorios compuesto de células fusiformes mezcladas con células plasmáticas maduras y células inflamatorias. Frecuentemente descritos en la región abdominal, pélvica, pulmonar y retroperitoneal, en pacientes pediátricos y adolescentes. La presentación en la glándula mamaria es extremadamente rara (27 casos descritos en la literatura), motivo por el cual su historia natural, recurrencia y potencial metastásico permanecen en estudio. Se trae a presentación un caso de una paciente posmenopáusica la cual fue tratada con cirugía de conservación, así como la revisión de la literatura de esta entidad.

© 2020 SESPM. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Inflammatory myofibroblastic tumour of the breast: Presentation of a case and review of the literature

Abstract Inflammatory myofibroblastic tumour (IMT) belongs to the group of pseudo inflammatory tumours, composed of fusiform cells mixed with mature plasma cells and inflammatory cells. It is frequently described in the abdomen, pelvis, lung and retroperitoneum in paediatric and adolescent patients. Presentation in the mammary gland is extremely rare (27 cases described in the literature), which is why its natural history, recurrence and metastatic potential remain under study. We present the case of a postmenopausal patient, who was treated with conservation surgery, as well as a review of the literature of this entity.

© 2020 SESPM. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: marcelochavezdiaz@gmail.com (M. Chávez Díaz).

Introducción

El tumor miofibroblástico inflamatorio (IMT), es una lesión poco frecuente de bajo grado compuestas por células fusiformes entremezcladas con células plasmáticas maduras y otras inflamatorias, incluyendo histiocitos, linfocitos y eosinófilos^{1,2}; de presentación en diferentes áreas: abdominopélvica, retroperitoneal, pulmones, siendo esta última el sitio más frecuente de afectación en edades pediátricas y adolescentes³; la presentación primaria en mama es extremadamente rara, con solo 27 casos reportados en la literatura⁴, presentamos el caso de una paciente posmenopáusica tratada con cirugía de conservación y revisión de la literatura.

Caso clínico

Una mujer de 53 años ingresa a la unidad de mastología por presentar una tumoración palpable en mama derecha, la cual nota desde hace 6 meses de crecimiento progresivo e indoloro. En sus antecedentes médicos presenta salpingooforectomía bilateral por quistes serosos de ovario, no presenta antecedentes oncológicos ni familiares de relevancia. Al examen físico reveló una tumoración de bordes definidos, móvil, sin adherencia a la piel de 3 cm localizada en cuadrante ínfero interno en radio 5 a 4 cm del pezón de la mama derecha; el examen de la mama contralateral y axilar no mostró alteraciones. La mamografía identificó un nódulo de bordes parcialmente definidos de 3,4 × 1,7 × 1,5 cm en el cuadrante ínfero interno de la mama derecha, categoría BIRADS 4B (fig. 1); la ultrasonografía mamaria informó de un nódulo heterogéneo bilobulado, con vascularización

periférica de 2,8 × 1,8 × 1,5 categoría BIRADS 3. Se realizó biopsia con aguja (CORE) radioguiada, seguida de tumorrectomía de mama derecha; en ambas muestras el estudio anatomopatológico reveló: proliferación fusocelular con áreas de patrón estoriforme, hialinización y denso infiltrado linfoplasmocitario con numerosos histiocitos y macrófagos cargados con hemosiderina (fig. 2). Las células fusiformes expresaron positividad para actina de músculo liso, siendo negativas para AE1/AE3, CK7, desmina, S-100, calponina y ALK. Por otro lado, CD68, CD45, CD3 y CD20 fueron positivos para el componente inflamatorio; la evaluación de bordes quirúrgicos fue informado como libres de células tumorales, concluyéndose que la histomorfología y el inmunofenotipo era concordante con un tumor miofibroblástico inflamatorio (fig. 3). Los estudios de imágenes en búsqueda de extensión de enfermedad a distancia (rayos X de tórax, ecografía abdominal y pélvica) fueron negativos. El curso postoperatorio de la paciente fue adecuado, actualmente presenta un seguimiento de 6 meses libre de recurrencia local.

Discusión

El TMI es una entidad poco frecuente, categorizada como una lesión de comportamiento intermedio por la organización mundial de la salud (WHO), generalmente ha sido considerado en el grupo de seudotumores inflamatorios (PTI)⁵, su etiopatogenia es incierta, algunos lo consideran como una respuesta inmunológica a un proceso inflamatorio o infeccioso⁶, otros investigadores han reportado reordenamientos cromosómicos ectópicos en el brazo largo del cromosoma 2 y el brazo corto del cromosoma 9, considerándola como una proliferación monoclonal por genética y

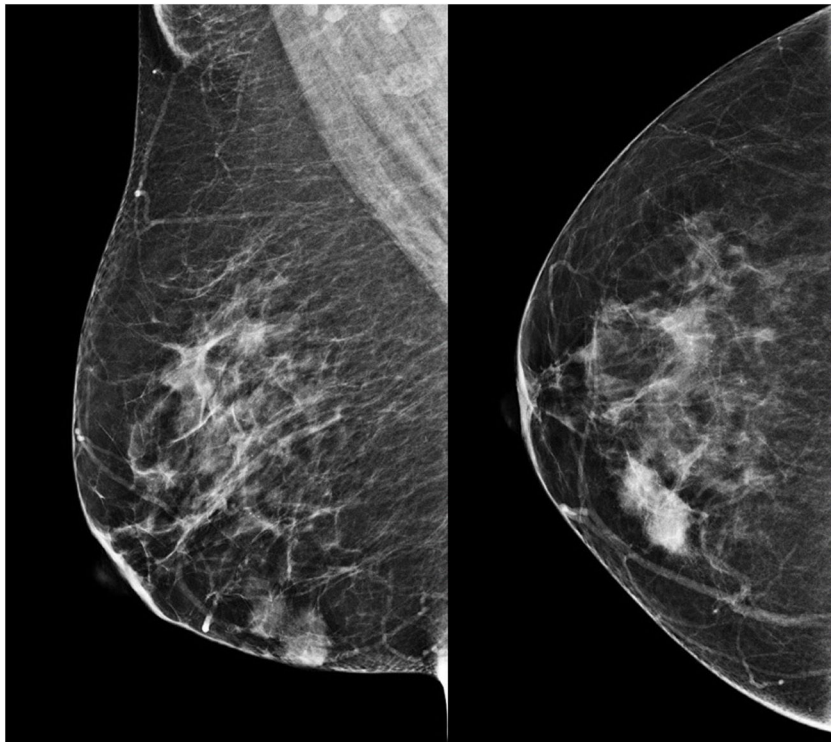


Figura 1 Mamografía.

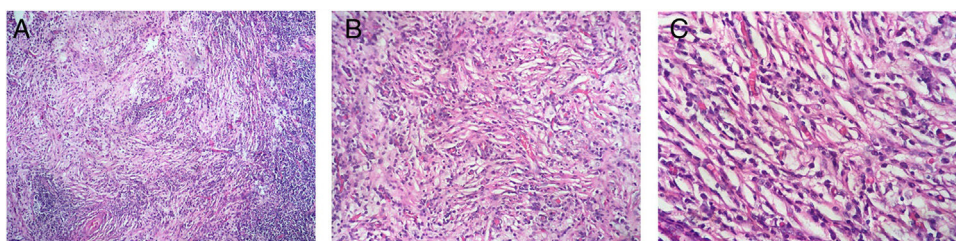


Figura 2 Biopsia CORE. Histopatología.

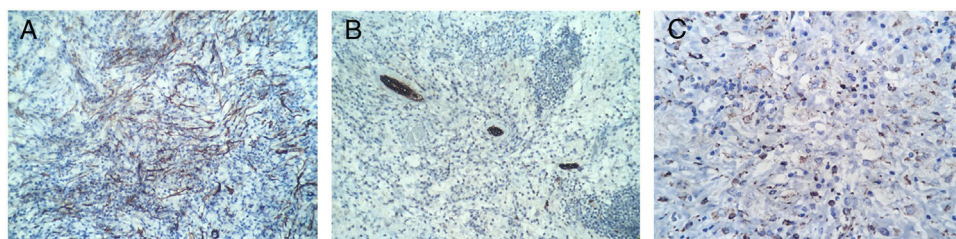


Figura 3 Inmunohistoquímica.

técnicas moleculares⁷. Los sitios de afectación más frecuentes son los pulmones y vías áreas en pacientes jóvenes, sin embargo también se han descrito en mesenterio, estómago, intestino delgado, mediastino, retroperitoneo, hígado y vejiga⁸⁻¹⁰. El compromiso primario en mama es extremadamente infrecuente⁴ con edad media de presentación de 48,9 años (rango: 23-60)¹¹, el escenario clínico muestra tumoraciones palpables, firmes, parcialmente móviles, con promedio de diámetro de 3,4 cm (rango: 1-9 cm)¹²; los cuales no cuentan con patrones específicos de imágenes (ecográficas ni mamográficas)¹³. Siendo el estudio histopatológico de suma importancia para definir el diagnóstico; descrito como una proliferación de células fuso celulares y de células inflamatorias (linfocitos, células plasmáticas e histiocitos) y clasificado por Coffin en 3 categorías: patrón mixoide o tipo de fascitis nodular; tipo de células de huso denso y el patrón fibroso hipo celular o tipo fibromatosis desmoide³. Los estudios de inmunohistoquímica en los casos descritos en la literatura muestran: positividad difusa a vimentina y marcadores miogénicos como: desmina, SMA, MSA, CD68, CD20, CD3 y CD5, así como positividad focal en un tercio de los pacientes a queratina, siendo negativos a ALK, S100, panqueratina, CD15, CD30, CD117 y CD23¹⁴⁻¹⁶. Es importante mencionar que aproximadamente el 50% de TMI son positivos para reordenamientos que envuelven al gen ALK probado en el análisis de FISH, lo cual guardaría relación con la hipótesis de que se trate de una neoplasia verdadera. Entre los diagnósticos diferenciales por histomorfología se debe considerar: fibromatosis desmoide, fascitis nodular, miofibromatosis, tumor *phyllodes* y carcinoma metaplásico.

El tratamiento en los casos descritos TMI primario de mama está circunscrito a la resección de la tumoración con márgenes libres, con un porcentaje de recurrencia local del 15%^{17,18}, guardando relación con: el sitio de presentación (el 2% en lesiones pulmonares y hasta el 25% en lesiones extra pulmonares), multifocalidad y tipo de resección; siendo las resecciones incompletas las que muestran mayor incidencia de recurrencia. Las metástasis son infrecuentes descritas en

menos de 5% de los casos^{19,20}. El tratamiento con quimioterapia, radioterapia e inmunomodulación no ha sido reportado como efectivo en los casos donde fue empleado²¹.

En vista del potencial del TMI de recurrencia local y metástasis se recomienda el seguimiento periódico del paciente con estudios clínicos e imagen lógicos (mamografía, ultrasonografía y resonancia magnética)²².

Se ha descrito el caso de una paciente con TMI primario de mama, la cual representa una entidad infrecuente de etiología aún incierta, con comportamientos clínico intermedio, realizándose como tratamiento único la resección quirúrgica (cirugía de conservación) con bordes libres según lo recomendado en los casos descritos por la literatura, actualmente se encuentra en controles periódicos debido al potencial de recurrencia y metástasis descritos. El entendimiento de esta entidad, así como sus variables de presentación, pueden ayudar a evitar sobre tratamientos quirúrgicos, tales como mastectomía con o sin disección axilar y guiar el seguimiento post tratamiento quirúrgico, es importante mencionar que se requiere estudios posteriores más amplios los cuales se ven dificultados por el escaso número de pacientes.

Confidencialidad de los datos

Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes, y han obtenido los permisos correspondientes.

Bibliografía

1. Coffin CM, Humphrey PA, Dehner LP. Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor: A clinical and pathological survey. *Semin Diagn Pathol.* 1998;15:85-101.
2. Coffin CM, Dehner LP, Meis-Kindblom JM. Inflammatory myofibroblastic tumor, inflammatory fibrosarcoma, and related lesions: An historical review with differential diagnostic consideration. *Semin Diagn Pathol.* 1998;15:102-10.

3. Coffin CM, Watterson J, Priest JR. Extrapulmonary myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). *Am J Surg Pathol*. 1995;19:859–72.
4. Canan K, Yasemin Ç, Ezgi H, Cem L, Şefka A. Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Breast Coexisting with Pseudoangiomatous Stromal Hyperplasia. *J Breast Health*. 2016;12:171–3.
5. Vecchio G, Amico P, Grasso G, Vasquez E, La G, Greca. Post-traumatic inflammatory pseudotumor of the breast with atypical morphological features: A potential diagnostic pitfall. Report of a case and a critical review of the literature. *Pathol Res Pract*. 2001;207:322–6.
6. Hojo H, Newton WA, Hamoudi AB, Qualman SJ, Wakasa H, Suzuki S, et al. Pseudosarcomatous myofibroblastic tumor of the urinary bladder in children: A study of 11 cases with review of the literature. *Am J Surg Pathol*. 1995;19:1224–36.
7. Su L, Atayde-Perez A, Sheldon S. Inflammatory myofibroblastic tumor: Cytogenetic evidence supporting clonal origin. *Mod Pathol*. 1998;11:364–8.
8. Kim EY, Lee IK, Lee YS. Inflammatory myofibroblastic tumor in colon. *J Korean Surg Soc*. 2012;82:45–9.
9. Pannain V, Passos J, Rocha F, Villela C, Caroli A. Aggressive inflammatory myofibroblastic tumor of the liver with underlying schistosomiasis: A case report. *World J Gastroenterol*. 2010;16:4233–6.
10. Chow SC, Nahal A, Mayrand S, Ferri LE. Pulmonary inflammatory myofibroblastic tumor invading the gastroesophageal junction. *Ann Thorac Surg*. 2010;89:1659–61.
11. Khanafshar E, Phillipson J, Schammel D, Minobe L, Cymerman J. Inflammatory myofibroblastic tumor of the breast. *Ann Diagn Pathol*. 2005;9:123–9.
12. Kim SJ, Moon WK, Kim JH, Cho N, Chang CM. Inflammatory pseudotumor of the breast: A case report with imaging findings. *Korean J Radiol*. 2009;10:515–8.
13. Mari I, Tomoyuki O, Hisashi S, Shun S, Norio N. Inflammatory Myofibroblastic Tumors of the Breast with Multiple Metastases to the Brain Lung, and Pancreas: Ultrasonographic Findings and a Review of the Literature. *Ultrasound Med Biol*. 2017;43:26–7.
14. Xijin M, Hairong L, Jing D, Ning Y, Liang Ch. Imaging findings of inflammatory myofibroblastic tumor in breast. *Medicine*. 2018;9:32–7.
15. Zhao HD, Wu T, Wang JQ, Zhang WD, He XL, Bao GQ, et al. Primary inflammatory myofibroblastic tumor of the breast with rapid recurrence and metastasis: A case report. *Oncol Lett*. 2013;5:97–100.
16. Christos M, Petros Ch, Evangelia K, Zoh A, Dimitrios M. Case Report Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Breast. *Case Reports in Surgery*. 2015, <http://dx.doi.org/10.1155/2015/705127>.
17. Vecchio GM, Amico P, Grasso G, Vasquez E, La Greca G, et al. Post-traumatic inflammatory pseudotumor of the breast with atypical morphological features: A potential diagnostic pitfall: Report of a case and a critical review of the literature. *Pathol Res Pract*. 2011;207:322–6.
18. Bosse K, Ott C, Biegner T. 23-Year-Old Female with an Inflammatory Myofibroblastic Tumour of the Breast: A Case Report and a Review of the Literature. *Geburtshilfe Frauenheilkd*. 2014;74:167–70.
19. Dehner L. Inflammatory myofibroblastic tumor: The continued definition of one type of so-called inflammatory pseudotumor. *Am J Surg Pathol*. 2004;28:1652–4.
20. Gleason B, Hornick J. Inflammatory myofibroblastic tumours: Where are we now? *J Clin Pathol*. 2008;61:428–37.
21. Dishop MK, Warner BW, Dehner LP, Kriss VM, Greenwood MF, Geil JD, et al. 'Successful treatment of inflammatory myofibroblastic tumor with malignant transformation by surgical resection and chemotherapy. *J Pediatr Hematol Oncol*. 2003;25:153–8.
22. Elham K, Julia P, David P, Lorraine M, Judith C. Inflammatory myofibroblastic tumor of the breast. *Ann Diagn Pathol*. 2005;9:123–9.