

CASO CLÍNICO

Papiloma intraquístico en la mama masculina

Elena Serrano Alcalá^{a,*}, María José Conde Martínez^a, Anna Martínez Jiménez^a,
Silvia Llaverías Borrell^a y Nuria Dominguez Agustin^b

^a Radiología. Hospital Universitari Sagrat Cor, Barcelona, España

^b Anatomía Patológica. Hospital Universitari Sagrat Cor, Barcelona, España

Recibido el 17 de marzo de 2020; aceptado el 22 de abril de 2020

Disponible en Internet el 6 de julio de 2020



PALABRAS CLAVE

Mama masculina;
Papiloma
intraquístico;
Mamografía;
Ecografía

KEYWORDS

Male breast;
Intracystic papilloma;
Mamography;
Sonography

Resumen El papiloma intraquístico en la mama masculina es una patología benigna poco frecuente, con tan sólo 15 casos descritos previamente en la literatura¹. El objetivo del presente caso clínico es describir los principales hallazgos por imagen radiológica y anatomopatológica, así como sus manifestaciones clínicas, haciendo una revisión bibliográfica y una actualización sobre su manejo terapéutico.

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

Intracystic papilloma in the male breast

Abstract Intracystic papilloma in the male breast is an uncommon benign disease. Only 15 cases have been reported in the literature to date. The aim of the present case report was to describe the main radiological and histological findings, as well as the clinical manifestations of this entity. We provide a literature review and an update of its therapeutic management.

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

Introducción

La gran mayoría de las lesiones detectadas en la mama masculina son benignas, siendo la ginecomastia, con diferencia, la patología más frecuente. Sin embargo, existen muchos

otros procesos, tanto benignos como malignos, que también pueden presentarse en el hombre². El cáncer de mama en el varón es poco frecuente, ya que supone menos del 1% de las neoplasias mamarias diagnosticadas³. La mama masculina se compone de un tejido rudimentario similar a la mama puerperal, con conductos subareolares, que bajo estímulos hormonales se pueden desarrollar. La formación de lóbulos es extremadamente rara, por tanto, la patología derivada de los mismos también lo es, por lo que, a diferencia de la mama femenina, en el varón tanto el fibroadenoma como los quistes son poco frecuentes⁴. El papiloma intraquístico

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: elena.serrano.1991@gmail.com
(E. Serrano Alcalá).



Figura 1 Mamografía izquierda. Proyecciones craneocaudal (A) y oblicua (B) donde se observa una masa de alta densidad ovalada, bien delimitada, posterior al pezón. No se aprecian calcificaciones asociadas.

en la mama masculina es una patología benigna muy inusual, con sólo 15 casos previamente¹. Presentamos el caso de un paciente masculino de 67 años de edad diagnosticado con papiloma intraquístico de la mama izquierda tratado en nuestro centro.

Caso clínico

Varón de 67 años de edad que consulta a la unidad de Patología Mamaria por palparse un bulto indoloro en la mama izquierda (MI). Refiere haber consultado seis años atrás por el mismo motivo en otro centro, entonces asociaba secreción de líquido por el pezón, realizándose una citología que fue negativa para células malignas. A la exploración física actual se palpa una tumoración retroareolar izquierda elástica, sin secreción por el pezón, alteración cutánea ni adenopatías axilares palpables. Se solicita a continuación una mamografía (fig. 1) en la que se observa una masa nodular densa, de contornos bien definidos y sin calcificaciones asociadas. En el estudio ecográfico (fig. 2) se identifica una lesión quística compleja a nivel de la unión de los cuadrantes de la MI, de unos 53 x 42 mm, con dos focos de componente nodular sólido, isoecoico, endoluminal, que dependen de su pared anterosuperior de 15 mm y 4 mm, ambos con registro Doppler-color. La lesión se catalogó como BI-RADS4b, recomendándose punción aspiración con aguja fina (PAAF) del componente quístico y core-biopsia del sólido.

Se utilizó una pistola semiautomática con aguja de 14G para proceder a biopsiar el componente sólido de la lesión y PAAF para obtener material para citología. El resultado anatomopatológico de la biopsia fue de Papiloma intraquístico (fig. 3), sin evidencia de células malignas en el resultado de la PAAF. El paciente se sometió a una mastectomía simple izquierda, con resultado final de papiloma intraquístico con hiperplasia intraductal usual.

Discusión

El tejido mamario es idéntico en ambos sexos en el nacimiento y permanece quiescente hasta la influencia hormonal en la adolescencia, donde los estrógenos lo estimulan y los andrógenos lo antagonizan⁵. La mama masculina adulta normal está compuesta predominantemente por grasa subcutánea y remanente de tejido ductal atrófico a nivel subareolar. Es por esto que la mayoría de las patologías en la mama masculina es benigna, con menos del 1% de lesiones malignas³. El papiloma intraquístico es una neoplasia benigna poco frecuente, con sólo 15 casos descritos previamente en la literatura, desde que Simpson et al. describieron el primero en 1969⁶. Continuando con la tabla creada por Yamamoto et al.,⁷ en la tabla 1 resumimos las características de los casos presentados hasta la fecha, incluyendo el nuestro. La edad de presentación va desde pocos meses hasta 82 años, con una edad media de 49 años. Parece mostrar un predominio izquierdo (67% de los casos descritos), con un tamaño medio de 4,6 cm (10-1,2 cm). Un total de ocho pacientes (50%) se manifestaron con secreción por el pezón y cuatro (25%) con dolor. En 12 de los casos se llevó a cabo exéresis de la lesión y en cuatro, mastectomía simple.

Clínicamente se suele presentar como una masa palpable dolorosa, con o sin secreción por el pezón. No se conocen los factores de riesgo de la enfermedad, aunque en dos de los casos descritos en la literatura, los pacientes tomaban fenotiazina^{7,8}, un neuroléptico que aumenta los niveles sanguíneos de prolactina cuando se toma como tratamiento crónico. La teoría de que la prolactina es un factor de riesgo para desarrollar cáncer de mama comenzó a sospecharse hace cuatro décadas^{9,10}. Según los últimos resultados de Wang et al., se ha encontrado una asociación significativamente positiva entre los niveles en plasma de prolactina y el riesgo de cáncer de mama¹¹, además se ha observado relación entre ciertos desórdenes hipotalámicos relacionados con la secreción de prolactina y el desarrollo de ectasia ductal¹². Aunque la relación entre el desarrollo de papiloma intraquístico masculino y los niveles de prolactina siguen sin estar claros.

La ecografía es el método de imagen de elección y es más sensible que la mamografía o la galactografía para el diagnóstico. Clásicamente el papiloma intraquístico se manifiesta como una lesión quística compleja o como una masa sólida en el interior de un ducto dilatado. El diagnóstico diferencial incluye patología maligna como el carcinoma papilar intraquístico y el carcinoma intraductal, difícilmente diferenciables por pruebas de imagen, por lo que el estudio histológico es imprescindible¹³. Desde el punto de vista de la anatomía patológica, se trata de una hiperplasia polipoide en el interior de un ducto. Normalmente el componente

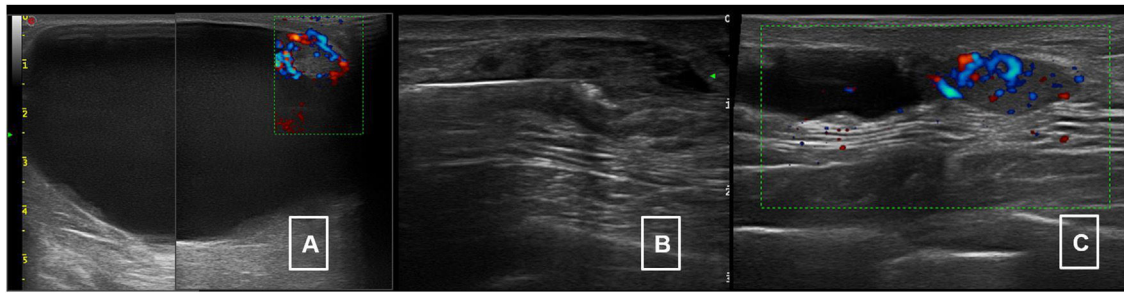


Figura 2 Ecografía de mama. (A) Lesión quística compleja, hipoanecoica con área parietal sólida que presenta registro Doppler central y periférico. (B) Punción aspiración con aguja fina del componente quístico, persistiendo el sólido (C).

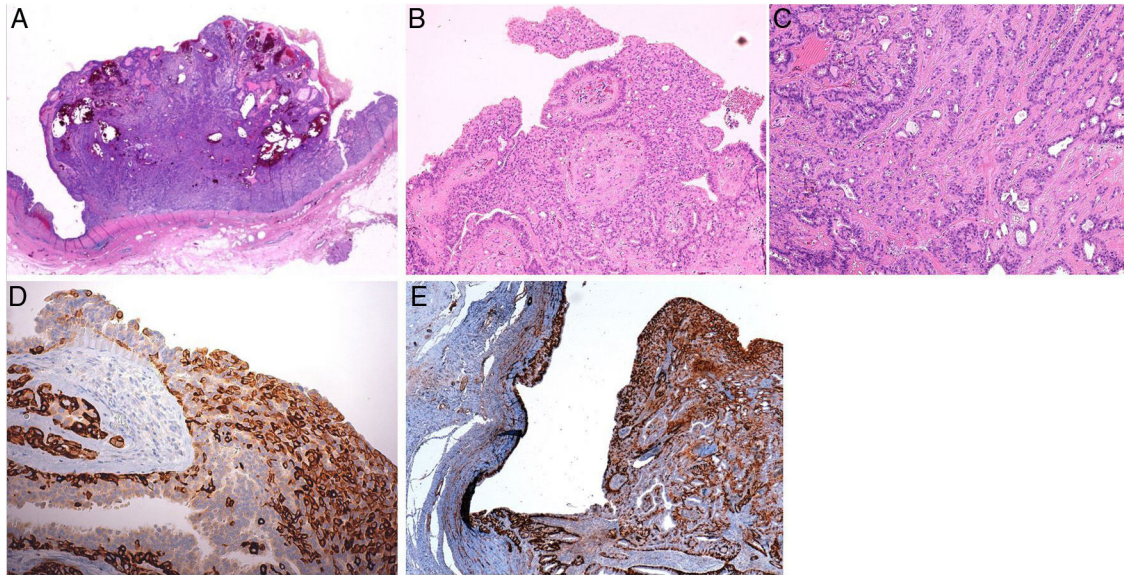


Figura 3 Estudio histológico. (A) Imagen macro-micro. (B) Papilas con áreas de hiperplasia. (C) Áreas de esclerosis correspondientes a las zonas más sólidas de la lesión. (D) Estudio inmunohistoquímico donde se aprecia positividad parcheada para CK 5/6 en las áreas de hiperplasia usual (no atipia). (E) Estudio inmunohistoquímico que muestra positividad para calponina en la periferia del conducto dilatado y en los ejes de las papilas.

Tabla 1 Características de los casos descritos hasta la fecha en los diferentes artículos, incluido nuestro caso

#	Edad	Localización	Tamaño	Secreción	Dolor	Tratamiento	Año
Simpson JS et al. ⁶	7 m	D	5 cm	-	-	Exéresis	1969
Weshler Z et al. ¹⁶	11 a	I	6 cm	-	+	Exéresis	1980
Giltman LI ¹⁷	62 a	D	3 cm	Sanguinolenta	-	Exéresis	1981
Detraux P et al. ¹⁸	51 a	?	10 cm	Serosa	-	Exéresis	1985
Watanabe O et al. ¹⁹	46 a	I	4-5 cm	-	-	Mastectomía	1986
Sara AS et al. ⁸	71 a	I	10 cm	Sanguinolenta	-	Exéresis	1987
Martorano Navas MD et al. ¹⁴	82 a	D	8 cm	-	-	Mastectomía	1993
Hassan MO et al. ²⁰	53 a	D	2 cm	+	-	Exéresis	1994
Crespiporro R et al. ²¹	60 a	I	4 cm	-	-	Mastectomía	1998
Pacelli AP et al. ²²	57 a	I	3 cm	Sanguinolenta	+	Exéresis	2002
Georgountzos V et al. ²³	56 a	I	2,7 cm	Sanguinolenta	-	Exéresis	2005
Shim JH et al. ²⁴	44 a	I	1,2 cm	Serosa	-	Exéresis	2008
Dag A et al. ²⁵	23 a	D	2,6 cm	-	+	Exéresis	2012
de Vries FEE et al. ²⁶	29 a	I	1,5 cm	+	+	Exéresis	2016
Heeseok C et al. ¹	83 a	I	6 cm	-	-	Exéresis	2017
Estudio actual	67 a	I	5,3 cm	-	-	Mastectomía	2020

quístico corresponde a una dilatación focal del ducto que contiene el papiloma.

El tratamiento quirúrgico es el de elección y el utilizado en todos los casos descritos, aunque en dos de los pacientes^{1,14}, la exéresis no se llevó a cabo hasta 10 y seis años después del diagnóstico, respectivamente, manejando a estos pacientes con controles hasta la cirugía. Anand et al.¹⁵ describieron un caso de papiloma intraductal sin atipia que progresó a carcinoma intraductal tras tres años de seguimiento, por esto y dada la poca morbilidad del tratamiento quirúrgico, creemos que en estos pacientes debería plantearse el manejo quirúrgico desde el diagnóstico. La recidiva es poco frecuente, existiendo sólo un caso descrito en la literatura⁷.

En conclusión, el papiloma intraquístico es una patología rara, con pocos casos descritos en la literatura, que se manifiesta como un quiste complejo. Comparte características de imagen con patología maligna, por lo que el estudio histológico es fundamental para el diagnóstico.

Financiación

Este trabajo no ha recibido ningún tipo de financiación.

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.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Heeseok C, Jaewoo P, Sunhee P. Non-Operative Treatment of Intracystic Papilloma in the Male Breast. *Clin Surg*. 2018; 3:2037.
- Nguyen C, Kettler M, Swirsky ME, Miller VI, Scott C, Krause R, et al. Male breast disease: Pictorial review with radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*. 2013 May;33:763–79, <http://dx.doi.org/10.1148/rg.333125137>.
- Wang Y, Chen K, Yang Y, Tan L, Chen L, Zhu L, et al. Incidence and survival outcomes of early male breast cancer: a population-based comparison with early female breast cancer. *Ann Transl Med*. 2019;7:536, <http://dx.doi.org/10.21037/atm.2019.10.04>.
- Chesebro AL, Rives AF, Shaffer K. Male Breast Disease: What the Radiologist Needs to Know. *Curr Probl Diagn Radiol*. 2019;48:482–93, <http://dx.doi.org/10.1067/j.cpradiol.2018.07.003>.
- Chen L, Chantra PK, Larsen LH, Barton P, Rohitopakarn M, Zhu EQ, et al. Imaging characteristics of malignant lesions of the male breast. *Radiographics*. 2006;26:993–6, <http://dx.doi.org/10.1148/rg.264055116>.
- Simpson JS, Barson AJ. Breast tumours in infants and children: a 40-year review of cases at a children's hospital. *Can Med Assoc J*. 1969;101:100–2.
- Yamamoto H, Okada Y, Tanigushi H, Handa R, Naoi Y, Oshima S, et al. Intracystic papilloma in the breast of a male given longterm phenothiazine therapy. *Breast Cancer*. 2006;13:84–8, <http://dx.doi.org/10.2325/jbcs.13.84>.
- Sara AS, Gottfried MR. Benign papilloma of the male breast following chronic phenothiazine therapy. *Am J Clin Pathol*. 1987;87:649–50, <http://dx.doi.org/10.1093/ajcp/87.5.649>.
- Welsch CW, Louks G, Fox D, Brooks C. Enhancement by prolactin of carcinogen induced mammary cancerigenesis in the male rat. *Br J Cancer*. 1975;32:427–31.
- Abghari M, Tamkus D, Bumpers H. Increased Risk of Male Breast Cancer with Prolactinoma: A Case Report. *Clin Oncol*. 2018;3:1454.
- Wang M, Wu X, Chai F, Zhang Y, Jiang J. Plasma prolactin and breast cancer risk: a meta-analysis. *Sci Rep*. 2016;6:25998, <http://dx.doi.org/10.1038/srep25998>.
- Shousha S, Backhouse CM, Dawson PM, Alaghband-Zadeh J, Burn I. Mammary duct ectasia pituitary adenomas. *Am J Surg Pathol*. 1988;12:130–3, <http://dx.doi.org/10.1097/0000478-198802000-00006>.
- Berg WA, Campassi CI, Ioffe OB. Cystic lesions of the breast: sonographic-pathologic correlation. *Radiology*. 2003;227:183–91, <http://dx.doi.org/10.1148/radiol.2272020660>.
- Martorano Navas MD, Raya Povedano JL, Añorbe Mendivil E, Muñoz Hernandez A, Ramos Gonzalez A, Villarrasa Andres A, et al. Intracystic papilloma in male breast: ultrasonography and pneumocystography diagnosis. *J Clin Ultrasound*. 1993;21, <http://dx.doi.org/10.1002/jcu.1870210108>.
- Anand G, Al-Khalisi N, Arif D, Hamidpour S, Lewis T. Rare case of male breast intraductal papilloma progressing to invasive ductal carcinoma: A radiologic-pathologic correlation. *Radiol Case Rep*. 2018;13:602–5, <http://dx.doi.org/10.1016/j.radcr.2018.02.021>.
- Weshler Z, Sulkes A. Contrast mammography and the diagnosis of male breast cysts. *Clin Radiol*. 1980;31:341–3, [http://dx.doi.org/10.1016/s0009-9260\(80\)80236-4](http://dx.doi.org/10.1016/s0009-9260(80)80236-4).
- Giltman LI. Solitary intraductal papilloma of the male breast. *South Med J*. 1981;74:774, <http://dx.doi.org/10.1067/j.cpradiol.2018.07.003>.
- Detraux P, Benmussa M, Tristant H, Garel L. Breast disease in the male: Galactography evaluation. *Radiology*. 1985;154:605–15.
- Watanabe O, Haga S, Shimizu T, Iida T, Haga Y, Ogawa K. A case of intracystic and non-invasive carcinoma of the male breast accompanied by intracystic papilloma. *J Jpn Surg Assoc*. 1986;47:1255–8 (in Japanese with English abstract).
- Hassan MO, Gogate PA. Intraductal papilloma of the male breast: An ultrastructural and immunohistochemical study. *Ultrastruct Pathol*. 1994;18:601–9, <http://dx.doi.org/10.3109/01913129409021903>.
- Crespiro R, Conti A, Frigerio B, Marchegiani C. Intracystic papilloma of the male breast associated with unilateral gynecomasty. *Radiol Med*. 1998;95:242–4.
- Pacelli AP, Bock BJ, Jensen EA, Heerden JA, Reynolds C. Intracystic papillary carcinoma of the breast in a male patient diagnosed by ultrasound-guided core biopsy: A case report. *Breast J*. 2002;8:387–90.
- Georgountzos V, Ioannidou-Mouzaka L, Tsouroulas M. Benign intracystic papilloma in the male breast. *Breast J*. 2005;11:361–2.
- Shim JH, Son ES, Kim EK, Kwak JY, Jeong J, Hong SW. Benign Intracystic Papilloma of the Male Breast. *J Ultrasound Med*. 2008;27:1397–400.
- Dag A, Yücel E, Kara T, Öcal K, Akca T. Intracystic Papilloma in male breast. *J Breast Health*. 2012;8:40–2.
- de Vries FEE, Walter AW, Vroenenraets BC. Intraductal papilloma of the male breast. *J Surg Case Rep*. 2016;2:1–2, <http://dx.doi.org/10.1093/jscr/rjw014>.