



Abordajes quirúrgicos en la resección de tumores fibrosos solitarios de pleura. Revisión de la literatura y reporte de caso

RESUMEN

El objetivo de este trabajo es revisar la literatura médica sobre las diversas opciones para el abordaje quirúrgico en la resección de tumores solitarios fibrosos de pleura y la presentación de un caso de tumor fibroso gigante solitario de pleura. El tumor solitario fibroso de pleura es una neoplasia rara de origen mesotelial que generalmente es de tipo benigno y con buen pronóstico si se logra una resección completa del tumor. Los síntomas aparecen hasta en 50% de los casos y puede haber síndromes paraneoplásicos como hipoglicemia o osteoartropatía pulmonar hipertrófica. El abordaje quirúrgico depende de varios factores, principalmente tamaño, localización, invasión y ausencia de criterios de malignidad. Revisamos la literatura con respecto a los diversos abordajes quirúrgicos para el manejo de estos tumores y presentamos el caso de una paciente de sexo femenino, de 69 años, sin factores de riesgo, sometida a toracotomía resectiva de un tumor fibroso gigante solitario de pleura con angioembolización transfemoral preoperatoria.

Palabras clave: tumor fibroso solitario de pleura, biopsia con aguja fina, biopsia con aguja Tru-Cut®, angioembolización transfemoral, toracotomía resectiva.

Surgical approaches for the resection of solitary fibrous tumors of the pleura. Literature review and case report

ABSTRACT

Our objective was to review the medical literature of the several modalities for the surgical approach during the resection of solitary fibrous tumors of the pleura and to present a case of a Giant Solitary Fibrous Tumor of the Pleura. Solitary Fibrous Tumors of the Pleura (SFTP) are a rare mesothelial neoplastic condition generally benign and with a good prognosis when complete resection can be achieved. Symptoms appear in up to 50% of the cases and paraneoplastic syndromes can occur including hypoglycemia and pulmonary hypertrophic osteoarthopathy. The surgical approach depends on the size, location, invasion and absence of malignancy criteria. We reviewed the current literature related to the different surgical approaches for these tumors and we present a case of a 69 year old female patient with a giant solitary fibrous tumor of the pleura treated with preoperative transfemoral angioembolization followed by resective thoracotomy.

Key words: solitary fibrous tumors of the pleura, fine needle aspiration (FNA) biopsy, core needle biopsy, transfemoral angioembolization, resective thoracotomy.

Myr. M.C. Fernando Espinoza-Mercado¹
Cap.1/o. M.C. Jorge Fagoaga-Valdivia²
Myr. M.C. Luis Enrique Payro-Hernandez²
Myr. M. C. Oscar Rodrigo Rocha-Erazo³
Myr. M. C. Juan Antonio Pérez-Rodríguez⁴
Myr. M.C. Claudia Esther Rodríguez-Montes⁵

¹ Jefe de Residentes del Área de Cirugía, Hospital Central Militar. México, D.F.

² Cirujano Cardiorácico adscrito al departamento de Cirugía Cardiorácica, Hospital Central Militar, México, D.F.

³ Residente de Cirugía General, Escuela Militar de Graduados de Sanidad, Hospital Central Militar, México, D.F.

⁴ Radiólogo Intervencionista, Jefe de Sección de Radiología Invasiva, Hospital Central Militar, México, D.F.

⁵ Anatomopatóloga, Jefa de Histología del Departamento de Anatomía Patológica, Hospital Central Militar, México, D.F.

Recibido: 17 de abril del 2015

Aceptado: 1 de mayo del 2015

Correspondencia: Dr. Fernando Espinoza Mercado
Hospital Central Militar
Sala de Cirugía Cardiorácica
Boulevard Manuel Ávila Camacho s/n
CP 11200 México, Distrito Federal
Tel. 55573100 ext. 1812
rcg303espinozaf@gmail.com

Este artículo debe citarse como

Espinoza-Mercado F, Fagoaga-Valdivia J, Payro-Hernandez LE, Rocha-Erazo OR, Pérez-Rodríguez JA, Rodríguez-Montes CE. Abordajes quirúrgicos en la resección de tumores fibrosos solitarios de pleura. Revisión de la literatura y reporte de caso. Rev Sanid Milit Mex 2015;69:235-241.

INTRODUCCIÓN

El primer tumor solitario de pleura fue descubierto por Wagner en 1870; posteriormente Klemperer y Rabin, en 1931, lo describieron como un tumor de origen mesenquimatoso que provenía del tejido conectivo mesotelial de la pleura.^{1,2} Se trata de un tumor raro que representa a 4% de las neoplasias pleurales, su incidencia es de 2.8 casos por cada 100 000 pacientes registrados;²⁻⁴ existen alrededor de 600 casos reportados en la literatura científica.^{5,6} Hasta 80% de los casos son benignos y el tratamiento de elección es la resección quirúrgica,⁵ sin embargo, hay criterios histológicos bien establecidos para malignidad publicados por England y sus colaboradores.⁷ Un 50% de los casos puede presentar síntomas como disnea, tos, dolor torácico y ocasionalmente manifestaciones extratorácicas como hipoglicemia y osteoartropatía pulmonar hipertrófica (síndrome de Pierre Marie-Bamberg). Los estudios de imagen esenciales para el establecer el diagnóstico son la telerradiografía de tórax y la tomografía computada. La tomografía con emisión de positrones-fluorodeoxiglucosa (PET-FDG) puede ser útil para diferenciar las formas benignas de las malignas.⁴ El diagnóstico definitivo se confirma por biopsia, la cual puede obtenerse ya sea por punción con aguja fina (PAF), la cual en opinión de varios autores suele ser inconclusa;^{2,8-10} la biopsia con aguja Tru-Cut® suele ser adecuada para el análisis histológico e inmunohistoquímico,^{2,4} presenta un patrón fusiforme característico con tinción positiva a CD34.¹¹

El tratamiento de estos tumores es quirúrgico y el abordaje depende de diversos factores como tamaño, localización, malignidad e invasión a estructuras vecinas. En cuanto al abordaje quirúrgico, en orden de frecuencia los más usados son toracotomía posterolateral, anterolateral y toracoscopia videoasistida (*video assisted thoroscopic surgery, VATS*).¹⁰ El pronóstico

suele ser bueno a largo plazo dependiendo de un tratamiento quirúrgico satisfactorio y de la negatividad de criterios histopatológicos de malignidad.^{10,12,13} Las tasas de recurrencia son bajas de acuerdo con diferentes series.^{6,8-10,14} Se ha descrito que cuando hay criterios de malignidad pueden presentarse recidivas precoces y frecuentes; ha habido casos de recurrencia 17 años después del diagnóstico; así mismo, se han descrito localizaciones extratorácicas mucho menos frecuentes pero de comportamiento clínico similar.¹⁵

CASO CLÍNICO

Mujer de 69 años de edad, originaria del estado de Guerrero, actualmente radica en el Distrito Federal. Sin antecedentes de tabaquismo ni enfermedades crónico-degenerativas. Acudió al Departamento de Urgencias con evolución de un año, con tos seca, pérdida involuntaria de 10 kg de peso, astenia, adinamia, debilidad generalizada e hiporexia. Se encontraron, a la exploración física, frecuencia cardíaca 84 lpm, frecuencia respiratoria 20 rpm, temperatura 36°C, presión arterial 116/75 mmHg, saturación de O₂ 77% (al aire ambiente) y saturación de O₂ 94% (mascarilla facial). Aspecto general de regulares condiciones, de edad aparentemente mayor a la cronológica, de complexión delgada, cuello sin distensión venosa-yugular, sin adenopatías cervicales; tórax asimétrico con cinética ventilatoria conservada, hemitórax izquierdo hipoventilado con matidez a la percusión y transmisión vocal incrementada. Auscultación cardíaca con S1 y S2 desplazados a la derecha sin agregados, sin adenopatías axilares, extremidades simétricas, hipotróficas, con fuerza muscular adecuada, hipocratismo digital, resto sin alteraciones. En la telerradiografía de tórax se observó masa en hemitórax izquierdo con desplazamiento mediastinal, sin infiltrados ni adenopatías parahiliares (Figura 1).



Figura 1. Telerradiografía de tórax. Imagen radioopaca ocupativa de espacio hemitorácico izquierdo con desplazamiento mediastinal a la derecha.

Los estudios de laboratorio: leucocitos totales 7.5×10^3 , linfocitos 1.4×10^3 , neutrófilos 5.8×10^3 , Hb 16.6 g/dL, Hcto 51.8%, plaquetas $227\,000/\text{mm}^3$, PTH: TP 16.8 s, TTP 31.5 s. Química sanguínea: glucosa 119 mg/dL, urea 7 mg/dL, BUN 7 mg/dL, Cr 0.52 mg/dL, PCR 11 u/mL, Na 139 mmEq/L, K 3.9 mmEq/L, Cl 103 mmEq/L, Ca 8.5 mg/dL.

Como parte de su evaluación se realizó tomografía de tórax donde se identificó masa ocupativa de tórax izquierdo, heterogénea de $25 \times 19 \times 14$ cm ocupando 90% del hemitórax respectivo, de contornos lisos, con áreas de necrobiosis intralesional, con densidad de 40 UH en fase simple, realce anormal y heterogéneo de 63 UH, con nódulos hipodensos en su interior, realce con el medio de contraste endovenoso y desplazamiento de estructuras mediastinales a la derecha por efecto de masa. No se observaron adenopatías mediastinales (Figuras 2 y 3).

Los marcadores tumorales antígeno carcinoembrionario (ACE) 2 ng/mL, alfa-fetoproteína

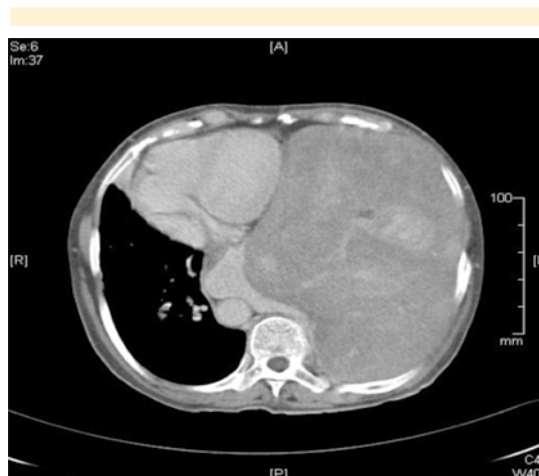


Figura 2. Desplazamiento de estructuras mediastinales a la derecha por efecto de masa.

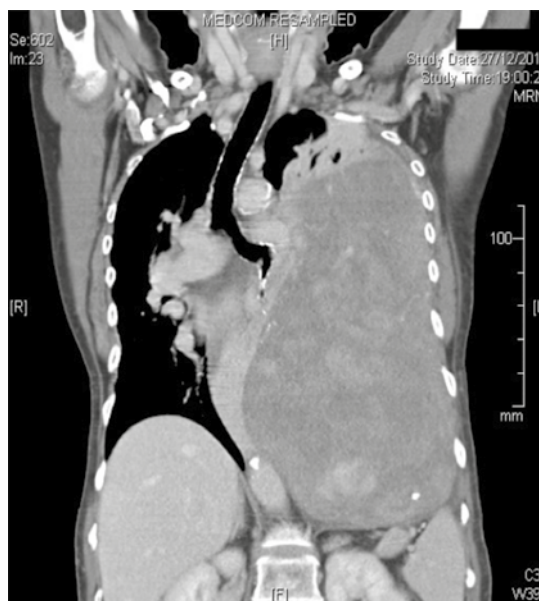


Figura 3. Tomografía contrastada de tórax. Imagen radiodensa ocupativa de 90% de tórax izquierdo a expensas de masa heterogénea.

1.45 UI/mL, CA-125 101 U/mL. Se realizó biopsia con aguja fina y Tru-Cut guiada por tomografía con reportes citológico e histopatológico nega-

tivos para neoplasia, con escasos leucocitos polimorfonucleares, fondo de fibrina, linfocitos y macrófagos.

En sesión conjunta de los servicios de neumología y cirugía cardiotorácica se decidió toma de biopsia a cielo abierto mediante minitoracotomía izquierda en la cual encontramos tumoración ocupativa firme, dura, vascularizada, de bordes lisos, sin invasión a la pared torácica ni al pulmón; se tomaron biopsias. Posteriormente se reportó con tejido conectivo fibroso e inflamación crónica. Debido a la importante vascularización del tumor se presentó a la paciente al servicio de radiología invasiva indicándose que, con base en la tomografía de tórax con contraste endovenoso, se procediera a una embolización de la arteria bronquial izquierda por su importante aporte vascular a la masa. La paciente evolucionó favorablemente después de la embolización y antes de la revaloración por radiología invasiva. 7 días después de la embolización se efectuó toracotomía resectiva. Se realizó un abordaje tipo toracotomía anteroposterior ampliada izquierda; al ingresar a la cavidad torácica se identificó una tumoración ocupativa de 80-90% de la cavidad torácica, no dependiente del pulmón; se le disecó de manera central hacia la periferia liberando adherencias a lóbulo pulmonar superior que se cortaron con engrapadora vascular de 45 mm. Enseguida se disecó en sentido lateral, inferior y hacia mediastino donde no había adherencias ni infiltración tumoral terminándose de liberar manualmente. Se extrajo un tumor de aspecto fibroso, vascularizado, de 3.5 kg de peso y tamaño 30 × 45 × 20 cm (Figura 4).

El informe histopatológico definitivo reportado por el Departamento de Anatomía Patológica identificó tumor fibroso solitario de pleura con tinción inmunohistoquímica detectándose células en huso positivas para CD34 (Figuras 5 y 6).

La evolución posoperatoria de la paciente fue satisfactoria retirándose sonda pleural el quinto

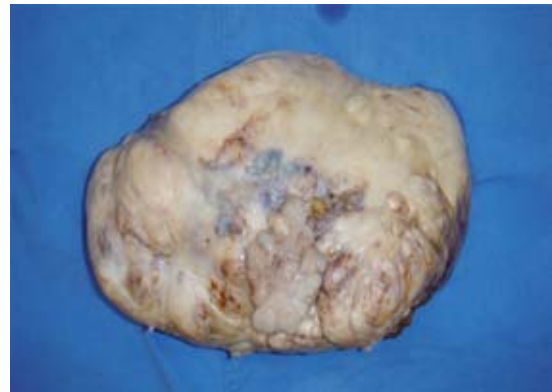


Figura 4. Tumor de aspecto fibroso, vascularizado, de un peso estimado en 3.5 kg y tamaño 30 × 45 × 20 cm.

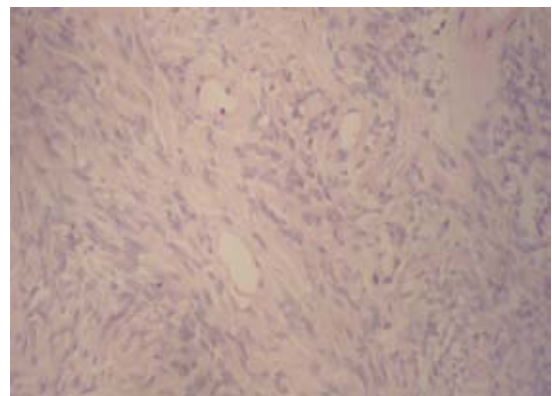


Figura 5. Tumor fibroso solitario de pleura, inmunohistoquímica con células en huso.

día después de la operación. Egresó al séptimo día posoperatorio en buenas condiciones generales. Su seguimiento a los 3, 6, 12, 18 y 24 meses fue sin complicaciones tardías ni recurrencia tumoral.

DISCUSIÓN

Presentamos el caso de una paciente con tumor solitario fibroso de pleura dada la poca frecuencia con que se presentan y el buen desenlace

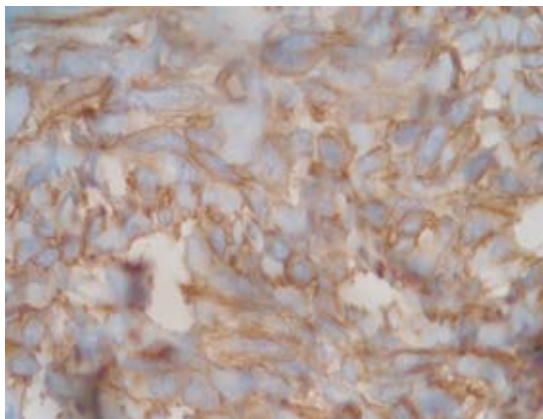


Figura 6. Células fusiformes positivas para CD34.

clínico que pueden tener cuando son resecados en su totalidad. Este tipo de tumores provienen de células mesenquimatosas originadas en la capa mesotelial de la pleura, principalmente la pleura visceral seguida de la parietal, diafragmática y mediastinal.¹⁰ Las manifestaciones clínicas de nuestra paciente concuerdan con las reportadas en publicaciones previas en las que se establece que hasta 50% presenta síntomas; los más frecuentes son disnea, tos y dolor torácico (40%). En nuestra paciente las manifestaciones extratorácicas observadas en la exploración física fueron pérdida de peso y osteoartropatía pulmonar hipertrófica también conocida como síndrome de Pierre Marie-Bamberg.²

Los tumores fibrosos solitarios de pleura representan alrededor de 4% de las neoplasias pleurales y se identifican mediante estudios radiográficos; posteriormente se debe realizar biopsia para la identificación histopatológica. En la publicación de Rena y su grupo se describió una sensibilidad baja para la biopsia por aspiración con aguja fina que sólo detectó 37.7% como francamente positivos y 62.5% como muestra no significativa. Esto muchas veces es producto de que el tejido en estos tumores es he-

terogéneo, con áreas de tejido fibroso rodeadas de áreas de necrosis e infiltrados leucocitarios.² En otras series, como la de Weygnard, se estableció buena sensibilidad para la biopsia con aguja Tru-Cut® (hasta 100%) por lo que se prefiere esta modalidad por sobre la biopsia con aguja fina.¹² En el caso clínico presentado la paciente fue sometida tanto a biopsia con aguja fina como Tru-Cut® obteniendo reportes negativos en ambos casos. Por ello se decidió la realización de minitoracotomía para toma de biopsia. Así pudo establecerse la confirmación histopatológica y durante esta intervención se apreció una vascularización importante de la masa tumoral por lo que se decidió angioembolización preoperatoria para minimizar el sangrado transoperatorio; ésta ha sido descrita en la literatura como útil en la prevención de sangrado.¹³

Decidimos reintervenir a la paciente mediante una toracotomía posterolateral izquierda ampliada debido al tamaño y localización del tumor. Hay diferentes opiniones acerca del abordaje en éste tipo de tumores dependiendo de la serie citada. Particularmente en el caso de las lesiones gigantes debe considerarse ésta opción terapéutica. Rena y sus colegas reportaron que hasta en 19% de sus pacientes hubo lesiones gigantes, en ésta serie los abordajes quirúrgicos fueron toracotomía posterolateral 66.7%, toracotomía anterolateral 28.5% y un caso (4.7%) mediante toracoscopia videoasistida. Diversas publicaciones recomiendan resección mediante toracoscopia videoasistida en tumores menores de 5 cm siempre y cuando pueda resecarse completamente el tumor⁸ ya que de esto dependerá la tasa de recidiva.^{2,4,10} En la serie retrospectiva de Magdeleinat y sus colaboradores, con 60 pacientes en un periodo de 20 años, los abordajes fueron toracotomía posterolateral (80%), anterolateral (8.3%), toracoscopia videoasistida (10%) y esternotomía (1.7%); encontraron que 80% de los tumores dependían de la pleura visceral (pediculados 79%, sésiles 21%), de la pleura

parietal 12%, diafragmática 5% y mediastinal 3%; 88% fueron encapsulados y 12% resultaron con comportamiento invasivo, el tamaño promedio fue de 8.5 cm (1-35 cm). En esta serie se documentaron 63% como benignos y 37% como malignos de acuerdo con los criterios de malignidad descritos por England y su grupo^{7,10} (Cuadro 1).

Cuadro 1. Criterios histopatológicos para riesgo de malignidad en tumores solitarios fibrosos de pleura

Celularidad abundante
Pleomorfismo
Atipia citonuclear
> 4 mitosis por campo alto (x10)
Necrosis-hemorragia amplia
Localización atípica
Invasión a estructuras adyacentes

England y cols.⁷

En cuanto a la extensión de las resecciones nuestra revisión de la literatura encontró variaciones interesantes que incluyen resección completa del tumor, lobectomía, bilobectomía, neumonectomía y resección de pared torácica. Cuadro 2. Las principales determinantes de la extensión de la resección fueron la identificación de invasión a estructuras adyacentes y la resección completa con márgenes libres de neoplasia, que a su vez fueron las variables de mayor impacto en la supervivencia y en la tasa de recurrencia en estos tumores.^{10,14} En el estudio de Magdeleinat la supervivencia global

a 5 y 10 años fue de 94%; la recurrencia en el grupo con tumor benigno fue de 0% y de 13.6% (n = 3) de los cuales 1 falleció. Al comparar estadísticamente las características de los tumores entre los grupos benigno *versus* maligno los factores que presentaron diferencias estadísticamente significativas fueron la presencia de síntomas ($P < 0.01$), derrame pleural ($P = 0.01$) y ausencia de pedículo ($P < 0.05$); en cambio, ni la edad de presentación ni el tamaño del tumor tuvieron significación estadística para predecir malignidad.¹⁰ En cuanto a pacientes con tumores solitarios fibrosos de pleura malignos existe un estudio retrospectivo publicado por Milano y sus colaboradores donde la distribución fue la siguiente: 42% localizados, 31% extensión regional (sin adenopatías), 27% extensión regional (con adenopatías) y metástasis a distancia; encontraron una supervivencia media de 4.6 años, con 87% y 49% a 1 y 5 años, respectivamente. En éste estudio los autores efectuaron un análisis univariado para establecer los principales factores asociados a mal pronóstico los cuales fueron el estadio ($P = 0.021$) y resección completa del tumor ($P = 0.053$).¹⁴

En el caso presentado el análisis histopatológico fue compatible con tumor fibroso solitario de pleura, sin criterios de malignidad; su recuperación posoperatoria fue adecuada y el seguimiento libre de recidiva a 24 meses, por lo que de acuerdo con la literatura no presenta factores de mal pronóstico ni probabilidades de recidiva.^{2,6,7,9,10}

Cuadro 2. Comparación de los diversos abordajes de acuerdo con las principales series publicadas sobre tumores solitarios fibrosos de pleura

Autor	Resección completa	Lobectomía	Bilobectomía	Neumonectomía	Resección de pared torácica
Magdelainat y cols ¹⁰ (n=60)	82%	6.7%	0%	3.3%	8.3%
Cardillo y cols. ⁸ (n=55)	93%	3.6%	1.8%	1.8%	0%
Rena y cols. ² (n=21)	100%	0%	0%	0%	0%
Sutter y cols. ⁹ (n=15)	80%	13%	0%	0%	7%



CONCLUSIÓN

Los tumores solitarios fibrosos de pleura son entidades muy poco frecuentes, predominantemente benignas. En el caso presentado consideramos que el manejo quirúrgico fue adecuado, con mínima morbilidad perioperatoria y una resección curativa ante la negatividad de criterios histopatológicos de malignidad y una resección quirúrgica completa del tumor.

REFERENCIAS

1. Klemperer P, Rabin CB. Pulmonary neoplasm of the pleura: a report of five cases. *Arch Patol* 1931;11:385-412.
2. Rena O, Filosso PL, Papalia E, et al. Solitary fibrous tumour of the pleura: surgical treatment. *Eur J Cardio-thorac Surg* 2001;19:185-189.
3. Okike N, Bernatz E, Woolner B. Localized mesothelioma of the pleura. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1978;75:363-372.
4. Thakkar RG, Sumeet S, Dumbre A, et al. Giant Solitary-Fibrous Tumour of Pleura. An Uncommon Intrathoracic Entity. A Case Report and Review of the Literature. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2011;17:400-403.
5. Robinson LA. Solitary fibrous tumours of the pleura. *Cancer Control* 2006;13:264-269.
6. Sung SH, Chang JW, Kim J, et al. Solitary fibrous tumors of the pleura: Surgical outcome and clinical course. *Ann Thorac Surg* 2005;79: 303-307.
7. England DM, Hochholzer L, McCarthy MJ. Localized benign and malignant fibrous tumors of the pleura. A clinicopathologic review of 223 cases. *Am J Surg Pathol* 1989;13:640-658.
8. Cardillo O, Facciolo F, Cavazzana AD, et al. Localized (solitary) fibrous tumours of the pleura: an analysis of 55 patients. *Ann Thorac Surg* 2000;70:1808-1812.
9. Sutter M, Gebhard S, Boumghar M, Peloponios N, Genton CY. Localized fibrous tumours of the pleura: 15 new cases and review of the literature. *Eur J Cardio-thorac Surg* 1998;14:453-459.
10. Magdelainat P, Alifano M, Petino A, et al. Solitary fibrous tumors of the pleura: clinical characteristics, surgical treatment and outcome. *Eur J Cardio-thorac Surg* 2002;21:1087-1093.
11. Langman G. Solitary fibrous tumor: A pathological enigma and clinical dilemma. *J Thorac Dis* 2011;3:86-87.
12. Weygnard B, Noel H, Goncette L, Noirhomme P, Collard P. Solitary fibrous tumor of the pleura: a report of five cases diagnosed by transthoracic cutting needle biopsy. *Chest* 1997;112:1424-1428.
13. Weiss B, Horton DA. Preoperative embolization of a massive solitary fibrous tumor of the pleura. *Ann Thorac Surg* 2002;73:983-985.
14. Milano MT, Singh DP, Zhang H. Thoracic malignant solitary fibrous tumors: A population-based study of survival. *J Thorac Dis* 2011;3:99-104.
15. Motta-Ramírez GA, Amezcua-Pérez S, Arroyo-Hernández G. Tumor fibroide solitario: Presentación de tres casos y revisión de la literatura. *An Radiol Mex* 2007;3:209-217.