

Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia. A propósito de una localización atípica en músculo trapecio

SANGÜESA NEBOT M^a. J.*, CABANES SORIANO F.*, FERNÁNDEZ GABARDA R.*, VILLANUEVA GARCÍA E.*, TERRÁDEZ RARO J. J.***, VALVERDE MORDT C.*

*SERVICIO DE TRAUMATOLOGÍA Y CIRUGÍA ORTOPÉDICA. **SERVICIO DE ANATOMÍA PATOLÓGICA. HOSPITAL ARNAU DE VILANOVA DE VALENCIA.

Resumen. La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia es una patología poco frecuente de presentación clínica inespecífica que lleva a que rara vez se diagnostique antes del estudio histológico. Habitualmente afecta a piel y tejido celular subcutáneo siendo rara la localización extracutánea. Presentamos un caso clínico de una tumoración en una mujer de 46 años localizada a nivel del músculo trapecio; y revisamos las características histopatológicas y de tratamiento de esta patología.

Angiolymploid hyperplasia with eosinophilia. Report of a cause localized in the trapezium muscle

Summary. Angiolymploid hyperplasia with eosinophilia is an uncommon condition with non-specific clinical symptoms that needs a histological study to have the diagnosis. Usually this lesion occurs in the skin and the subcutaneous tissue, with extracutaneous affection being rare. We describe a tumour affecting the trapezius muscle in a 40-year-old woman; and we review the histopathologic findings and the treatment of this pathology.

Correspondencia:
María José Sangüesa Nebot.
Servicio de Traumatología y Ortopedia.
Hospital Arnau de Vilanova.
C./ San Clemente nº 27
46015. Valencia.
e-mail: mjosan@comv.es

Introducción

La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia (HACE) es una lesión vascular proliferativa benigna poco frecuente con entidad histopatológica propia¹⁻³. Se ha descrito como nódulos únicos ó múltiples que afectan habitualmente a piel y tejido celular subcutáneo sobre todo a nivel de cabeza y cuello, con predominio en área auricular, conducto auditivo externo y zonas preauriculares (Ingrams). Aunque muy escasos, se han descrito algunos casos en otras localizaciones como a nivel de la mano¹, cavidad oral³, y otras; y afectando a estructuras diferentes de piel y tejido celular subcutáneo, caso del nervio cubital⁵, músculo esquelético⁶ ó del hueso⁷. Afecta fundamentalmente a mujeres (70%) entre la tercera y quinta década⁸.

Presentamos un caso clínico en una mujer joven en una localización poco frecuente: un músculo estriado, el trapecio.

Caso clínico

Mujer de 46 años de edad, sin antecedentes médicos de interés, secretaria de profesión, que refería molestias a nivel cervical y en trapecio izquierdo de tiempo de evolución. Dos meses antes de consultar en nuestro servicio notó la presencia de una tumoración a nivel de trapecio izquierdo que fue catalogada inicialmente como contractura muscular atribuida a sus actitudes posturales laborales. Desde entonces refería aumento del tamaño de la tumoración. En el momento de la consulta se apreciaba a la exploración una tumoración a nivel de trapecio izquierdo, de consistencia dura, adherida a planos profundos, oval, e indolora, de unos 5 por 2 centímetros. Además se apreciaba un edema supraclavicular en el mismo lado.

Se realizó estudio de la zona mediante resonancia nuclear magnética (RNM) apreciándose una lesión intramuscular fusiforme de 6 por 2 centímetros localizada en



Figura 1. RMN inicial. Secuencia STIR. Plano coronal.

el tercio superior del músculo trapecio izquierdo de intensidad de señal mixta, heterogénea, hiperintensa en la secuencia STIR, de intensidad de señal intermedia en imágenes potenciadas en T2 e isointensa con la musculatura en imágenes potenciadas en T1. Se trataba de una lesión aparentemente bien delimitada, sin infiltración macroscópica de las partes blandas adyacentes (Fig. 1). Tras la administración de contraste paramagnético se evidenciaba una captación significativa y heterogénea (Fig. 2). Se observaban además imágenes sugestivas de adenopatías en hueco supraclavicular izquierdo, y entre el trapecio izquierdo y la musculatura erectora de la columna. Con esta técnica de imagen se sugería un ori-

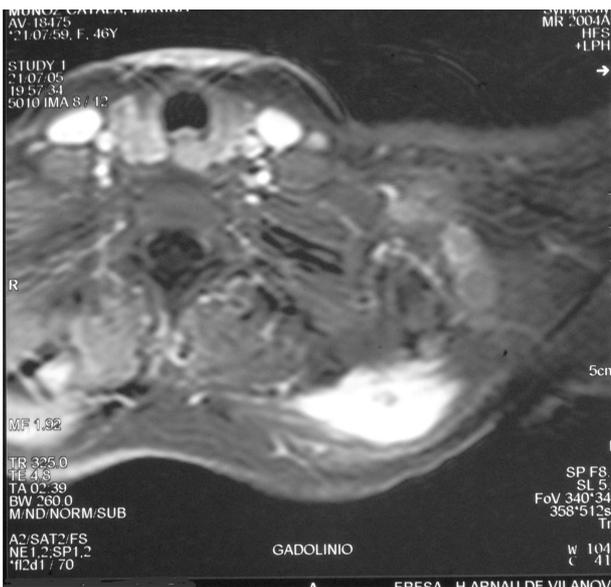


Figura 2. RMN inicial. Imagen en plano axial con saturación grasa tras la administración de contraste intravenoso (Gadolinio).

gen tumoral más que inflamatorio de la lesión, pero era difícil etiquetar con precisión la lesión.

En la analítica realizada el único hallazgo de interés era un aumento en las cifras de IgE 1684 KU/l (normal 0,00-100,00).

Con sospecha de lesión sarcomatosa se realizó biopsia a cielo abierto de la tumoración. El estudio histopatológico diagnosticó la lesión como hemangioma epiteloide (hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia). No se pudo realizar biopsia de las iniciales adenopatías supraclaviculares, porque en este momento, quince días después de la realización de la RMN habían desaparecido. Con este diagnóstico se realizó una resección intramuscular

con margen que la ocultaba palpándose en el interior de la pieza extirpada la tumoración dura y elástica.

El estudio anatomopatológico de la pieza tumoral en el que se observa tejido muscular con infiltración no encapsulada por agregados linfoides entremezclados con una proliferación vascular con endotelios superplásicos a la que se asocian elementos linfoplasmocitoides y leucocitos polimorfonucleares eosinófilos muy abundantes con áreas en las que se observan fenómenos de fibrosis colágena que delimita los agregados linfoides con el componente vascular proliferativo acompañante, confirmó el diagnóstico de la biopsia: hemangioma epiteloide con eosinofilia (Fig. 3).

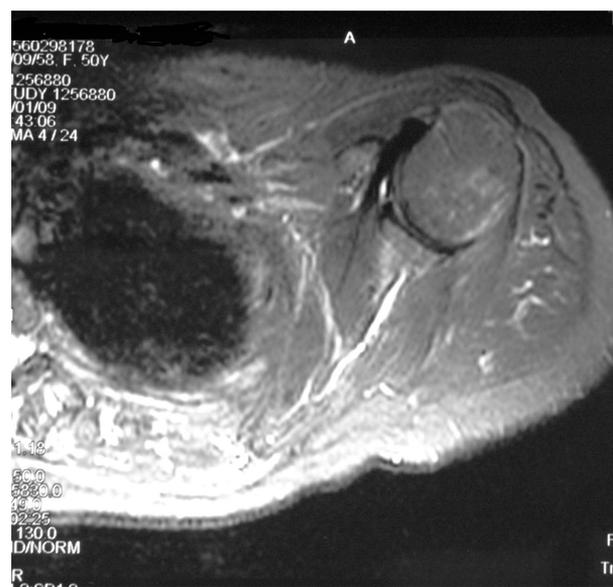


Figura 4. RMN control anual. No se observa lesión.

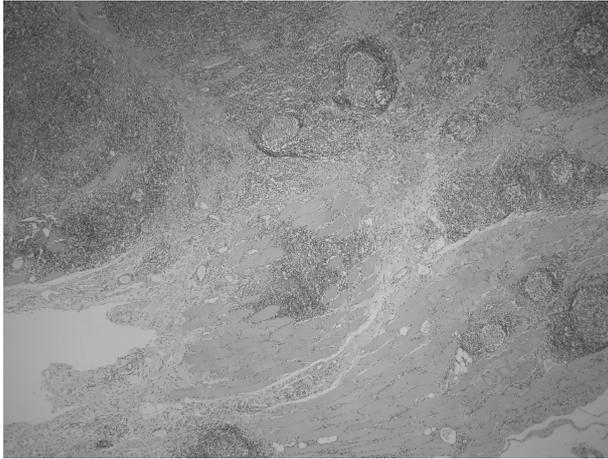


Figura 3. Imagen histológica. (H.E. 100x.)

Dada la resección completa de la lesión, la paciente no requirió tratamientos coadyuvantes adicionales.

En los estudios de control realizados mediante valoración clínica y resonancia nuclear magnética al año (Fig. 4) y los tres años de la exéresis, no se ha encontrado recidiva de la tumoración. La paciente está actualmente asintomática tras tres años y medio de la exéresis.

Discusión

El término hiperplasia angioliñoide con eosinofilia (HALE) fue descrito en 1969 por Wells y Whimster⁹, y durante tiempo se utilizó en la literatura como sinónimo de enfermedad de Kimura⁸. Aún hoy, hay autores que defienden que se tratan de formas clínicas de una misma enfermedad, aunque la tendencia actual es considerarlas dos entidades diferentes a nivel epidemiológico, clínico y anatomopatológico⁸; señalándose que los hallazgos histológicos sugieren que la enfermedad de Kimura es una enfermedad inflamatoria, en tanto que la HALE es un tumor benigno de células endoteliales².

Es interesante conocer esta entidad para evitar diagnósticos erróneos alarmantes que lleven a sobretratamientos innecesarios¹. La rareza de esta lesión y la clínica no específica, llevan a que el diagnóstico clínico rara vez sea posible¹⁰.

La etiología y patogenia continúan sin ser claras^{4,6}, aunque se ha hablado de un origen neoplásico benigno del endotelio vascular con una fuerte respuesta inflamatoria secundaria^{8,11}.

Las adenopatías son raras²; y cuando las hay son locales, no sistémicas⁴.

En la HALE es excepcional la eosinofilia⁴ ó el aumento de IgE, así como la proteinuria².

Estos datos analíticos son de valor para plantear el principal diagnóstico diferencial: con la enfermedad de Kimura, que se presenta sobre todo en varones jóvenes orientales y suele acompañarse de adenopatías. Será el estudio anatomopatológico quien dará el diagnóstico diferencial definitivo. En la hiperplasia angioliñoide con eosinofilia la lesión al microscopio muestra una proliferación vascular invasiva de células endoteliales, con un infiltrado inflamatorio constituido por linfocitos, histiocitos y eosinófilos; y a veces formación de linfadenopatías^{5, 9,12}; a la contra la enfermedad de Kimura se caracteriza por hiperplasia linfoide con marcada infiltración de eosinófilos y proliferación de capilares e incremento del grosor de los vasos, estando la fibrosis presente en todos los estadios.

En el diagnóstico diferencial histológico de esta patología hay que incluir también el sarcoma de Kaposi y el angiosarcoma¹.

El tratamiento de elección de la lesión es la escisión quirúrgica completa que previene la recidiva^{3,6,12}. Ocasionalmente el tratamiento se ha complementado con tratamientos farmacológicos con corticoides, retinoides orales, inmunomoduladores y agentes antialérgicos^{3,11}. Por otro lado, se han ensayado distintos tratamientos no quirúrgicos como la infiltración de la lesión con corticoides, cuya eficacia ha sido mediocre y las recidivas frecuentes^{4,8}. Excepcionalmente se ha descrito la regresión espontánea de esta lesión¹⁰.

Bibliografía:

1. **Risitano G, Gupta A, Burke F.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia in the hand: a case report. *J Hand Surg (Br)* 1990; 15B: 376-7.
2. **Chun SI, Ji HG.** Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: clinical and histopathologic differences. *J Am Acad Dermatol* 1992; 27:954-8.
3. **Salinas F O, Corredoira S Y, Rojas A G.** Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia: Presentación de un caso en cavidad oral y revisión de la literatura. *Rev Med Chile* 2007; 135:636-9.
4. **Ingrams D R, Stafford N D, Creagh T M, Path M R C.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Journal of Laryngology and Otology* 1995; 109:262-4.
5. **Martorell M, Pérez-Vallés A, García-García JA, Calabuig C, Aguilera L.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia involving the cubital nerve. *Acta Neuropathol* 2004; 107:372-6.
6. **Buchanan R, Sworn MJ, Mousley JM.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia involving skeletal muscle. *Histopathology* 1980; 4:197-204.
7. **Fornasier V L, Finkelstein S, Gardiner G W, Wong D.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: a bone lesion pathologically resembling Kimura's disease of skin. A report of two cases. *Clin Orthop* 1982; 166:243-8.
8. **Ennibi K, Rabhi M, Al Bouzidi A, Labraimi A, Chaari J, Toloune F.** Hyperplasie angiolymphoïde à éosinophiles. *Revue Médecine Interne* 2007; 28:346-8.
9. **Wells GC, Whimster.** Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Br J Derm* 1969; 81:1-15.
10. **Satpathy A, Moss C, Raafat F, Slator R.** Spontaneous regresión of a rare tumor in a child: angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the hand: case report and review of the literature. *Br J Plastic Surg* 2005; 58:865-8.
11. **Pancorbo Mendoza J, Sánchez Saldaña L, Ingar Carbone B, Regis Roggero A, Sialer Vildózola M^a C.** Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia. *Dermatol Peru* 2003; 13:57-60.
12. **Hendricks M W, Moore M M, Dell P C.** Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: A case report. *J Hand Surg* 1985; 10A:286-8.