Papiloma intraductal metacrónico en un niño. Caso clínico

Intraductal metachronic papilloma. Clinical case

Dra. Celeste C. Patiño Gonzáleza y Dr. Enrique J. Romero Manteola

RESUMEN

Introducción. La asociación de telorragia y ginecomastia nos orienta al diagnóstico de papiloma intraductal. Este tumor benigno es muy infrecuente en la edad pediátrica.

Caso clínico. Niño de 2 años que presentó ginecomastia y telorragia en la mama izquierda. Se realizó mastectomía. A los 4 años, presentó el mismo cuadro en la mama derecha, que requirió también mastectomía derecha, con buena evolución posquirúrgica en ambas oportunidades. La anatomía patológica informó papiloma intraductal sinsignos de malignidad ni atipia. Conclusión. El papiloma intraductal raramente afecta a niños; hay 15 casos reportados. La ecografía es el método de diagnóstico más empleado. En los pacientes masculinos, la mastectomía es recomendada para asegurar un diagnóstico y tratamiento definitivo.

Palabras clave. telorragia, niños, ginecomastia, papiloma intraductal.

ABSTRACT

Introduction. The association of gynecomastia and bloody nipple discharge (thelorragia) leads us to the diagnosis of intraductal papilloma. This is a very rare benign tumor in children.

Clinical case. A 2 year old male child was referred due to gynecomastia and bloody nipple discharge of the left breast. A mastectomy was performed. At the age of 4 he returned with identical symptoms but in the right breast. A right mastectomy was also required. An excellent clinical outcome was present in the follow up. The pathology reported intraductal papilloma with no evidence of malignancy or atypia.

Conclusion. The intraductal papilloma rarely affects children, there are 15 reported cases. Ultrasound is the most useful diagnostic method. In male patients, mastectomy is recommended to ensure definitive diagnosis and treatment. Key words: nipple bleeding, children, gynecomastia, intraductal papilloma.

http://dx.doi.org/10.5546/aap.2015.e314

a. Servicio de Cirugía Pediátrica. Sanatorio Allende. Córdoba. Argentina.

Correspondencia:

Dra. Celeste C. Patiño Gonzále: celestecarolina@hotmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 26-11-2014 Aceptado: 20-7-2015

INTRODUCCIÓN

Las enfermedades que afectan a la glándula mamaria en la edad pediátrica son infrecuentes; la mayoría ocurren durante la adolescencia y son de características benignas.¹ En aquellos varones con telorragia asociada a ginecomastia unilateral, el papiloma intraductal (PI) es un diagnóstico probable pero raro. Hay 15 casos reportados en la bibliografía mundial en el sexo masculino, incluidas todas las edades.²⁻⁴ El PI es una tumoración pequeña subareolar, acompañada por secreción de sangre o sanguinolenta a través del pezón. Histopatológicamente, es una lesión polipoide hiperplásica que obstruye el conducto galactóforo, lo que se asocia con áreas quísticas.⁵ Se presenta el caso de un niño de 4 años de edad con PI bilateral metacrónico.

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo masculino de 2 años de edad, sin antecedentes patológicos de relevancia, que consultó en el Servicio de Cirugía Pediátrica por telorragia unilateral izquierda. No refirió antecedentes familiares de patología mamaria. Al momento del examen físico, se constató una tumoración subareolar izquierda de aproximadamente 10 mm de diámetro, indolora, redondeada, de bordes definidos, que, con la compresión, descargó líquido sanguinolento por el pezón. No se observaron cambios en la piel ni en el pezón. No presentaba alteraciones en la mama derecha. No presentaba adenopatías axilares. Se realizó una ecografía, que informó una imagen subareolar de 7 mm de diámetro, circunscrita con áreas hipoecogénicas, sin calcificaciones en su interior (Figura 1). De acuerdo con el Sistema de Informes y Registro de Imágenes de la Mama (BI-RADS, 2003),6 se clasificó como una lesión 4 A: anomalía de baja sospecha de malignidad, en la cual está indicada la biopsia. Se realizó mastectomía izquierda por vía subareolar. La anatomía patológica informó tejido fibroconectivo adiposo, blanquecino y elástico con un área microquística en su interior de 20 x 6 x 5 mm. Microscópicamente, tejido mamario con conductos y acinos, conductos dilatados, formación polipoide intraductal

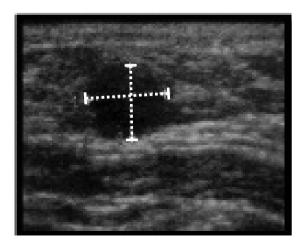
con vasos de neoformación, células fusadas e histiocitos (*Figura* 2). No se observaron signos de malignidad ni atipia. El diagnóstico fue PI. Tuvo buena evolución posquirúrgica y cosmética.

Dos años después, consultó nuevamente por telorragia derecha. Al momento del examen físico, presentaba masa subareolar de similares características a la anteriormente resecada contralateral. La ecografía informó una tumoración quística de bordes definidos con aéreas hipoecogénicas sin calcificaciones, de aproximadamente 10 mm de diámetro. Se realizó una mastectomía derecha por vía subareolar. Tuvo buena evolución posquirúrgica. La anatomía patológica diagnosticó PI sin signos de malignidad ni atipia. El seguimiento durante 12 meses tuvo buenos resultados estéticos y sin evidencia de recidiva de las lesiones.

DISCUSIÓN

El PI es un tumor benigno de la mama que afecta a pacientes de sexo masculino en casos excepcionales. ^{7,8} Hay 15 casos descritos en la bibliografía consultada y no encontramos una presentación tan precoz ni bilateral. Este tumor se presenta frecuentemente en pacientes de sexo femenino de entre 15 y 25 años, aunque hay algunos casos pediátricos. ⁷ El PI es una tumoración pequeña, subareolar, indolora, palpable cuando el papiloma obstruye el conducto galactóforo; de esta manera, se produce su dilatación y se forman áreas quísticas y zonas de inflamación. En este caso, es también llamado papiloma intraquístico. Puede presentarse

FIGURA 1. Ecografía de la mama derecha con imagen quística en su interior



en forma bilateral en un 25% de los casos. Característicamente, se evidencia una secreción sanguinolenta u hemorrágica por el pezón.^{5,9}

Entre los diagnósticos diferenciales de tumoración de mama en pediatría, se incluyen fibroadenoma, sarcoma phyllodes, adenoma del pezón, hiperplasia papilar ductal, carcinoma papilar ductal infiltrante y las metástasis (relacionadas con enfermedades hematopoyéticas). La ginecomastia en pacientes de entre 2 y 10 años, en ausencia de otros signos de desarrollo sexual, debe considerarse un signo de alarma y se deben descartar otras patologías fuera de la glándula mamaria que pudieran ocasionarla.^{1,2} Entre estas, podemos mencionar leucemia, hemofilia, disfunción tiroidea, síndrome de Klinefelter, tumores, como seminoma, tumor de células de Leydig, tumores hepáticos, teratoma, tumor adrenal feminizante.5

En el caso de telorragia, los diagnósticos diferenciales nos deben orientar a ectasia ductal o mastitis, dentro de los más frecuentes. La mastitis se presenta con signos inflamatorios locales y tumoración dolorosa. La ectasia ductal es más frecuente en lactantes y no se asocia a ginecomastia.¹⁰

La ecografía es el principal método de evaluación de la mama. Nos puede informar sobre ectasia de conductos o la ecogenicidad del tumor, áreas quísticas, lesión infiltrante o circunscrita y áreas de calcificación y así orientar sobre las características benignas o malignas de la lesión.¹¹

Figura 2. Microscopía: conductos y acinos, conductos dilatados (flecha), formación polipoide intraductal con vasos de neoformación (flecha gruesa)



La mamografía no es un método diagnóstico eficaz, debido a la densidad de la mama a esta edad,² y solo es útil para identificar masas con microcalcificaciones. Esta situación no es frecuente y, cuando se presenta, se relaciona con la transformación maligna tumoral.⁷ Además, se suma la necesidad de no exponer a los niños a la radiación.

La punción-aspiración con aguja fina (PAAF) requiere de expertos en el área, tanto para la realización del procedimiento como para la observación de la muestra. Si esta no evidencia signos de atipia, hay autores que recomiendan el seguimiento periódico de los pacientes, mediante ecografía o mamografía, sin necesidad de cirugías radicales en el caso de mujeres adolescentes y adultas. PAAF, ya que someteríamos al paciente a un procedimiento con anestesia general, que, en el caso de no ser concluyente en el diagnóstico, requeriría una biopsia quirúrgica posterior.

El diagnóstico definitivo y el tratamiento de esta patología requieren de la biopsia escisional.

El análisis microscópico del PI muestra una formación papilar benigna de arquitectura ordenada, compuesta de células con características apocrinas y actividad secretoria. En los casos en que se observan signos de atipia, se debe realizar inmunohistoquímica para evidenciar el componente mioepitelial. La ausencia de células mioepiteliales es indicativa de carcinoma papilar.¹¹

Algunas publicaciones consideran el papiloma intraductal como una condición premaligna. ¹⁴ Varios genes se relacionan con el riesgo aumentado de transformación maligna, entre los que se describen el cromosoma 16q locus 13 y la mutación de gen supresor de tumores q21.

Es controvertida la necesidad de realizar estudios genéticos en los casos de papiloma intraductal sin atipia, ya que la resección quirúrgica adecuada aseguraría una buena evolución.²

La incidencia de carcinoma papilar infiltrante de mama es mayor en varones que en mujeres,² con pocos casos en edad pediátrica.^{7,15}

En pacientes de sexo masculino, está indicada la resección de la glándula mamaria por vía subareolar. En las pacientes femeninas, la resección tumoral con márgenes libres, o cuadrantectomía en lesiones más extensas, son las técnicas indicadas.^{2,3,7,10}

Los pacientes con PI en los que se realiza mastectomía solo requerirán controles clínicos anuales. Aquellas pacientes en las que se realizó solo resección tumoral o cuadrantectomía deberán concurrir a control clínico-oncológico cada 3-6 meses. El seguimiento será por un plazo de 10 años.^{7,14}

Considerando la baja morbilidad relacionada con el procedimiento quirúrgico, los buenos resultados cosméticos, las implicancias psicológicas de la ginecomastia y la necesidad de asegurar un diagnóstico definitivo mediante una biopsia de márgenes libres de lesión, la cirugía radical es el tratamiento de elección en este grupo de pacientes.

REFERENCIAS

- Rodríguez Velasco A, Toro Guerrero J, López Corella E, Perez Peña Diazconti M, Valencia Mayoral P. Patología mamaria en niños: casuística de tres hospitales pediátricos de concentración. Patología Rev Latin 2010;48(3):160-8.
- Durkin E, Warner T, Nichol P. Enlarging unilateral breast mass in an adolescent male: an unusual presentation of intraductal papilloma. *J Pediatr Surg* 2011;46(5):e33-5.
- Shim J H, Son E J, Kim E K, Kwak JY, et al. Benign intracystic papilloma of the male breast. *J Ultrasound Med* 2008;27(9):1397-400.
- 4. Georgountzos V, Ioannidou-Mouzaka L, Tsouroulas M, Ellinas P, et al. Benign intracystic papilloma in the male breast. *Breast J* 2005;11(5):361-2.
- Greydanus D, Matytsina L, Gains M. Breast Disorders in Children and Adolescents. Prim Care 2006;33(2):455-502.
- Breast Imaging-Reporting and Data System: BI-RADS. 4th ed. Reston, VA: American College of Radiology; 2003.
- Rosen PP. Breast Tumors in Children. In Rosen PP. Rosen's Breast Pathology. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2009:807-828.
- 8. Hughes DE. Orr JD, Smith NM. Intraduct papillomatosis of the breast in a peripubertal male. *Pediatr Pathol* 1994;14(4):561-5.
- Capasso R, Mamone R, Rossi E, Zeccolini M, Rotondo A. Breast intraductal papilloma as cause of bloody nipple discharge in a 2-year-old girl. Radiography 2015;21(1):93-5.
- Martínez Blanco J, Lombraña Álvarez E. Telorragia en la infancia, ¿motivo de alarma? Bol Pediatr 2012;52(221):175-8.
- Rosen PP. Benign Proliferative Lesions of the Male Breast. In Rosen PP. Rosen's Breast Pathology. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2009:776-86.
- 12. Richter-Ehrenstein C, Tombokan F, Fallenberg E, Schneider A, Denkert C. Intraductal papillomas of the breast: Diagnosis and management of 151 patients. *Breast* 2011;20(6):501-4.
- Jaffer S, Nagi C, Bleiweiss IJ. Excision is indicated for intraductal papilloma of the breast diagnosed on core needle biopsy. Cancer 2009;115(13):2837-43.
- Rosen PP. Papilloma and Related Benign Tumors. In Rosen PP. Rosen's Breast Pathology. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2009:85-136.
- Rogers DA, Lobe TE, Rao BN, Fleming ID, et al. Breast malignancy in children. J Pediatr Surg 1994;29(1):48-51.