

# Hamartoma endobronquial: a propósito de un caso.

Manfred Zink R<sup>(1)</sup>, Eduardo Fernández P<sup>(1)</sup>, Gonzalo Cardemil H<sup>(1)</sup>, Jorge Salguero A<sup>(1)</sup>, Paola Riffo C<sup>(2)</sup>, Diego Reyes O<sup>(2)</sup>, Ignacio Robles G<sup>(2)</sup>, Claudia Morales H<sup>(3)</sup>, Carola Mandiola G<sup>(2)</sup>, Marla Silva C<sup>(2)</sup>.

## Resumen

*El hamartoma es el tumor pulmonar benigno más frecuente. En su mayoría se encuentran en el parénquima pulmonar, pero en algunos casos se presentan en bronquios. Los hamartomas endobronquiales pueden ser hallazgos radiológicos, aunque en ocasiones pueden producir tos crónica o neumonías a repetición. El manejo es la resección endoscópica, pero debido al difícil diagnóstico diferencial con las neoplasias malignas pulmonares, la resección pulmonar juega un papel importante. Se presenta el caso de una paciente de 72 años con un cuadro de tos crónica. Se pesquisó en estudio radiológico una masa en lóbulo superior derecho con compromiso bronquial. La fibrobroncoscopia con biopsia y citología no pudo determinar diagnóstico. Se realizó lobectomía superior derecha. El estudio histológico intraoperatorio y diferido confirmaron el diagnóstico de hamartoma.*

## Summary

*Hamartoma is the most common pulmonary benign tumor. Most hamartomas are located in the lung parenchyma, but in some cases they appear in bronchi. Endobronchial hamartomas can be a radiographic finding, although sometimes they can produce chronic cough or recurrent pneumonia. Its treatment is endoscopic resection, but due to the difficult differential diagnosis with malignant*

<sup>(1)</sup> Departamento de Cirugía.  
Hospital Clínico Universidad  
de Chile,

<sup>(2)</sup> Alumnos de Medicina.  
Facultad de Medicina.  
Universidad de Chile,

<sup>(3)</sup> Departamento de  
Anatomía Patológica.  
HCUCh.

Correspondencia: Dr. Manfred Zink, Departamento de Cirugía, HCUCh.  
Santos Dumont 999 Independencia, Santiago  
e-mail: pao\_riffo@yahoo.com

*pulmonary neoplasms, pulmonary surgery should be considered in some cases. The present article report a case of a 72 year-old woman with chronic cough. Radiology revealed a pulmonary mass located in righth upper lobe with bronchial commitment. Fibrobronchoscopy with biopsy and cytology cannot determine the diagnose. Right upper lobectomy was made. Intraoperative and differed histology confirm the diagnoses of hamartoma.*

### Introducción

Los hamartomas son tumores originados a partir de componentes normales del tejido en el cual se presentan<sup>(1)</sup>. Constituyen la neoplasia benigna pulmonar más frecuente<sup>(4,5)</sup>. Se ubican principalmente en el parénquima pulmonar, y en forma excepcional se presentan en bronquio<sup>(2)</sup>. En esta última ubicación existe discusión en cuanto a la forma de presentación, ya que algunas series muestran que la mayoría de los casos son hallazgos radiológicos, mientras otros autores refieren que son principalmente sintomáticos. A continuación se presenta un caso.

### Caso Clínico

Paciente sexo femenino, 72 años, con antecedentes de hipotiroidismo y dislipidemia, ambas patologías en tratamiento. Consulta en Viña del Mar en abril 2001 por cuadro de 3 meses de evolución, caracterizado por tos seca, irritativa, sin otros síntomas asociados. Se solicita en esa oportunidad radiografía de tórax que mostró una masa en lóbulo superior derecho, de contornos poco precisos. Se indica tratamiento sintomático con antitusivos, con control posterior. Por persistir sintomatología, se solicita TAC de tórax (12-sep-01), que muestra nódulo de 3 x 2 cm en lóbulo superior derecho, cuya periferia se impregna de contraste en forma heterogénea. Se amplía estudio, realizándose fibrobroncoscopia (26-oct-01), que muestra oclusión de bronquio de segmento apical del lóbulo superior derecho por tumor broncogénico. Cepillado bronquial negativo para células

neoplásicas, y biopsia con resultado bronquitis crónica inespecífica. Se solicitan ecografía abdominal y TAC de cerebro (13-dic-01), sin hallazgos significativos. TAC de tórax de control (15-ene-02) muestra el mismo nódulo, sin cambios en comparación a imágenes anteriores. Se decide mantener una conducta expectante y manejo sintomático.

La paciente persiste sintomática, consulta nuevamente en junio 2003, se solicita TAC de tórax de control (13-jun-03) que muestra masa entre segmentos apical y posterior de lóbulo superior derecho, de 6,7 cm de diámetro. Debido al aumento del tamaño tumoral, la paciente consulta en el Hospital Clínico Universidad de Chile, donde se inicia nuevo estudio que incluyó:

- TAC abdomen y pelvis (9-jul-03): Lesión hepática sólida hipodensa de 10 mm, y quiste renal simple derecho.
- TAC cerebro (10-jul-03): Normal.
- PET scan pulmonar (23-jul-03): Masa hipermetabólica de pulmón derecho compatible con tumor primario.
- TAC de tórax (30-jul-03): Muestra aumento del tamaño de la masa, hasta 7 cm de diámetro, con calcificaciones en su interior (Fig.1). La masa se impregna con contraste en su periferia, en forma heterogénea.

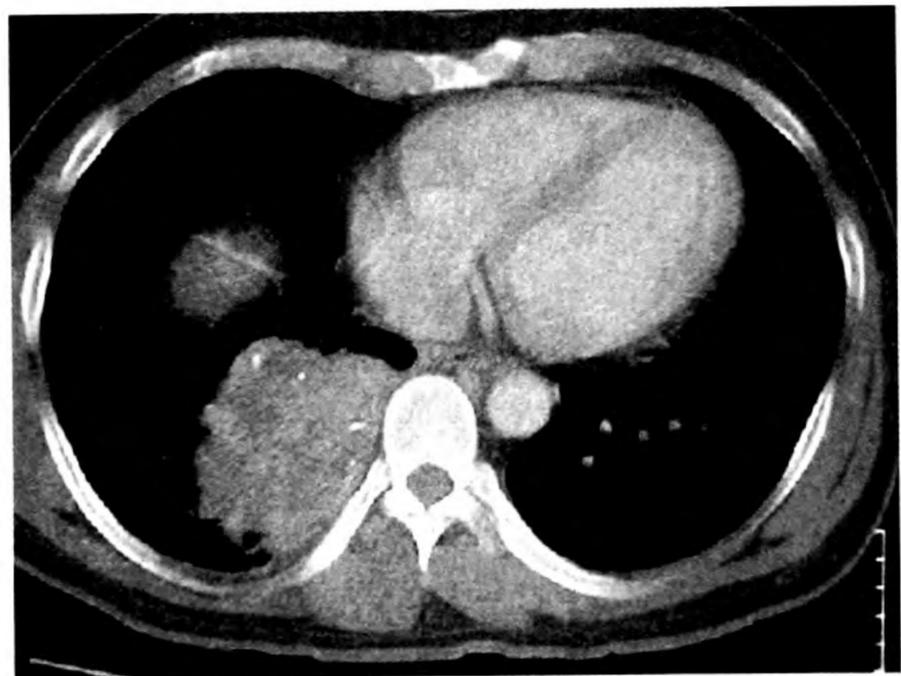
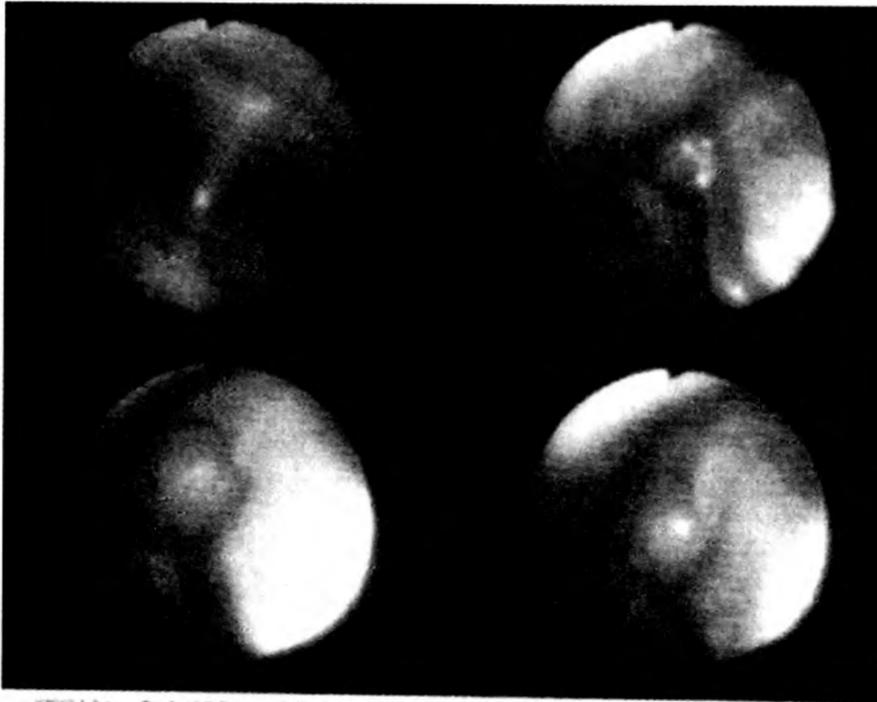


Figura 1: TAC de tórax en ventana mediastínica, que muestra masa de 7 cm de diámetro en lóbulo superior derecho.



HOSPITAL CLINICO U. DE CHILE. SERVICIO RESPIRATORIO.  
 Figura 2: Imagen fibrobroncoscópica de masa que ocluye bronquios de segmentos apical y posterior de lóbulo superior derecho.

- Fibrobroncoscopia (30-jul-03): Lesión de aspecto neoplásico en lóbulo superior derecho, que ocluye segmentos apical y posterior (Fig. 2). Biopsia muestra mucosa bronquial y tejido cartilaginoso normal. Lavado bronquioalveolar y cepillado bronquial negativos para células neoplásicas.

Paciente se hospitaliza el día 20 de agosto de 2003, para resolución quirúrgica de su patología. El 21 de agosto de 2003 se realiza lobectomía superior derecha, cuya biopsia intraoperatoria muestra tumor endobronquial con tejido cartilaginoso, sin signos de malignidad, sugerente de hamartoma. La biopsia diferida confirmó un hamartoma endobronquial de 2,3 x 1,5 x 1 cm, con tejido pulmonar adyacente con inflamación crónica, sin malignidad (Figs. 3 y 4). Evoluciona en buenas condiciones en el postoperatorio, egresa el 29 de julio, con mejoría de su sintomatología.

### Discusión

Los hamartomas son tumores originados por el crecimiento excesivo y desorganizado de algunos componentes normales de los tejidos

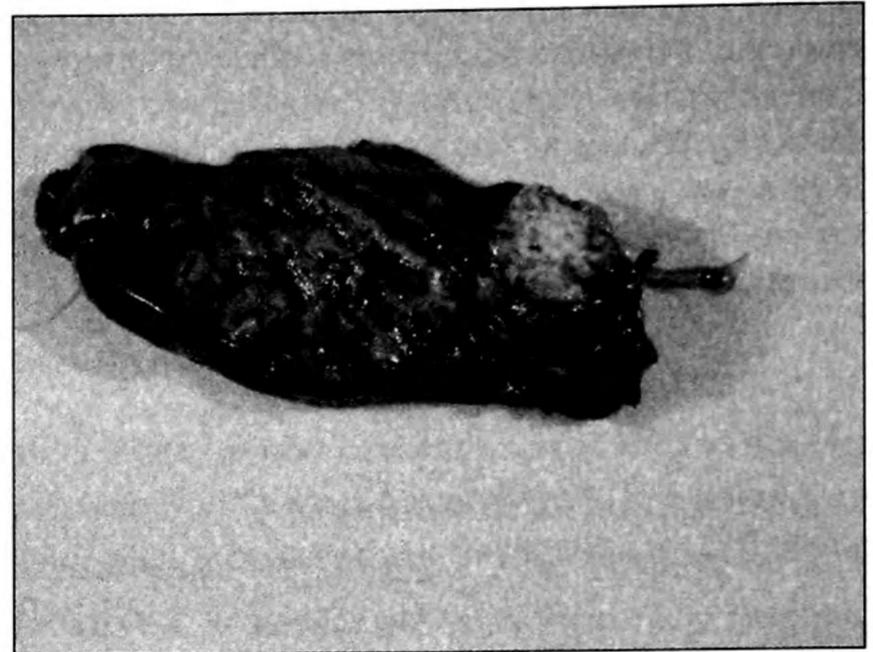


Figura 3: Tejido pulmonar con lesión sólida blanquecina de 2,3 x 1,5 x 1 cm.

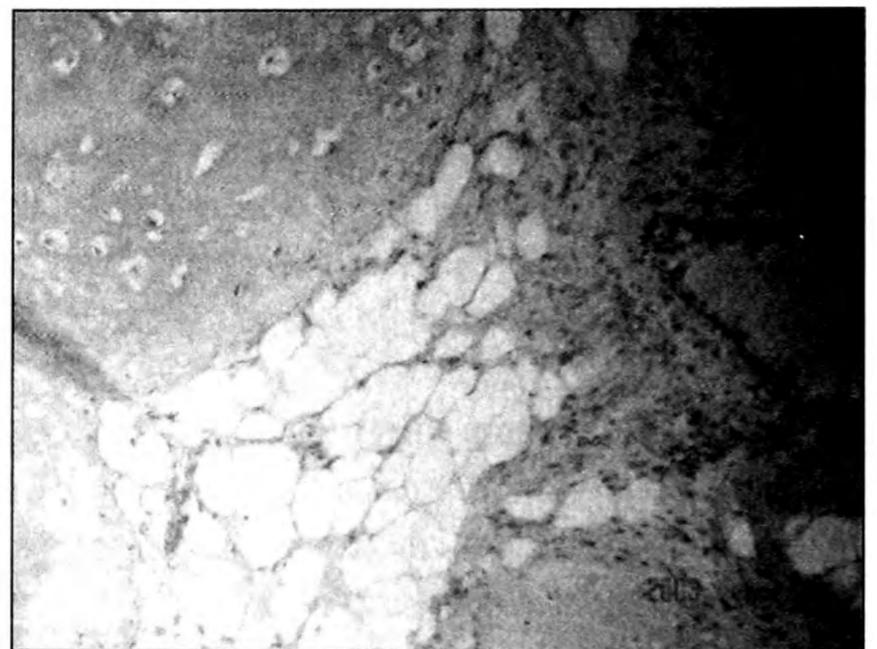


Figura 4: 200x, Tinción Hematoxilina-Eosina de tumor pulmonar. Se observa proliferación de tejido cartilaginoso, tejido adiposo y vasos sanguíneos, con epitelio bronquial normal entremezclado, sin atipia celular.

en los cuales se presentan. Principalmente están formados por cartílago y tejido graso, pero pueden también contener tejido fibroso, hueso y músculo liso<sup>(1)</sup>. Inicialmente descritos como una malformación congénita, las series de casos publicadas y los estudios citogenéticos han confirmado su carácter neoplásico<sup>(2,3)</sup>.

El hamartoma es el tumor benigno pulmonar más frecuente<sup>(4,5)</sup>, y la tercera causa de nódulo pulmonar solitario<sup>(6)</sup>. Se ha descrito una

incidencia en la población general que va desde un 0,025% a un 0,32% en diferentes estudios, con una edad de presentación máxima alrededor de los 60 años de edad. Es más frecuente en hombres, con un riesgo relativo de 3:1 a 4:1<sup>(2,5,7,8)</sup>.

La mayor parte de los hamartomas pulmonares se ubica en el parénquima pulmonar, y sólo una minoría de los casos se presenta como un tumor endobronquial. En múltiples series se describe que la frecuencia de hamartoma endobronquial va de un 1,4% a un 10% del total de los hamartomas pulmonares<sup>(2,5,7,8)</sup>. También se han descrito casos de hamartoma endotraqueal<sup>(9)</sup>.

En general, los hamartomas endobronquiales están compuestos principalmente por tejido cartilaginoso, aunque también son frecuentes los de tejido adiposo. Más raros son los fibroblásticos y los óseos<sup>(2)</sup>. En el caso presentado, el tumor estaba compuesto por tejido cartilaginoso, también conocido como hamartocondroma.

La forma de presentación del hamartoma endobronquial es controvertida. Algunos estudios indican que la gran mayoría los casos son hallazgos radiológicos, mientras otros muestran que la mayoría es sintomático al momento del diagnóstico<sup>(5)</sup>. Los síntomas que pueden producir son neumonías, hemoptisis, disnea o tos crónica<sup>(10,11)</sup>, siendo esta última la forma de presentación del caso descrito. En una serie de 43 pacientes, descrita por Cosío y col, un 44% de los hamartomas endobronquiales se presentó como neumonía y 16% como hemoptisis, mientras que un 13,9% de los casos fue asintomático<sup>(7)</sup>.

La radiografía de tórax muestra atelectasias, signos de hiperinsuflación localizada, condensaciones secundarias o imágenes de infiltrado intersticial<sup>(2)</sup>. En ocasiones se puede observar calcificaciones descritas en patrón de

"popcorn", imagen patognomónica del hamartoma<sup>(8)</sup>. La tomografía computada de tórax muestra principalmente el compromiso bronquial, siendo muy difícil de diferenciar del carcinoma broncogénico, excepto en hamartomas endobronquiales con gran contenido graso u óseo, donde la TAC puede discriminar mejor entre ambos tumores<sup>(6,12)</sup>.

La imagen endoscópica puede sugerir de manera muy precisa el diagnóstico, ya que hamartoma se caracteriza por observarse como una masa dura, sésil o polipoídea, cubierta de epitelio bronquial normal<sup>(7,8)</sup>. Sin embargo, en ocasiones el epitelio puede presentar una metaplasia escamosa, lo que dificulta el diagnóstico diferencial con neoplasias malignas<sup>(12,13)</sup>.

Debido a que los tumores benignos del árbol traqueobronquial tienen una baja incidencia<sup>(13)</sup>, el diagnóstico diferencial de esta patología es principalmente con los tumores malignos que comprometen la vía aérea, considerando la baja frecuencia del hamartoma endobronquial y las características ya descritas (imagenología y endoscopia similar)<sup>(6,11,12,13)</sup>.

Respecto del manejo, diferentes métodos endoscópicos han dado excelentes resultados, siendo muy utilizada la resección del tumor con láser<sup>(11)</sup>. El método recomendado cuando el diagnóstico es claro<sup>(7,8)</sup> es la cirugía con broncoplastia, segmentectomía o inclusive lobectomía, debido a que el estudio preoperatorio puede no hacer patente el diagnóstico. Las biopsias por endoscopia bronquial tienen un bajo rendimiento, y el diagnóstico diferencial con los tumores pulmonares malignos es difícil<sup>(2,7,8,11,13)</sup>. En el caso presentado, debido al estudio imagenológico sugerente de neoplasia maligna y estudio endoscópico pulmonar no concluyente, se procedió a realizar una resección amplia del tumor, en este caso una

lobectomía, demostrando que aunque existen signos que orientan hacia el diagnóstico preoperatorio del hamartoma endobronquial, éstos pueden no estar presentes, haciendo difícil diferenciarlo de otras neoplasias pulmonares, principalmente malignas.

### Referencias

1. Takeshima Y, Furukawa K, Inai K. 'Adenomyomatous' hamartoma of the lung. *Pathol Int* 2000; 50: 984-6.
2. Van den Bosch JM, Wagenaar SS, Corrin B, Elbers JR, Knaepen PJ, Westermann CJ. Mesenchymoma of the lung (so called hamartoma): a review of 154 parenchymal and endobronchial cases. *Thorax* 1987; 42: 790-3.
3. Fletcher JA, Pinkus GS, Donovan K, Naeem R, Sugarbaker DJ, Mentzer S, Pinkus JL, Longtine J. Clonal rearrangement of chromosome band 6p21 in the mesenchymal component of pulmonary chondroid hamartoma. *Cancer Res* 1992; 52: 6224-8.
4. Otani Y, Yoshida I, Kawashima O, Yamagishi T, Ishikawa S, Ohtaki A, Morishita Y. Benign tumors of the lung: a 20-year surgical experience. *Surg Today* 1997; 27: 310-2.
5. Gjevre JA, Myers JL, Prakash UB. Pulmonary hamartomas. *Mayo Clin Proc* 1996; 71: 14-20.
6. Siegelman SS, Khouri NF, Scott WW Jr, Leo FP, Hamper UM, Fishman EK, Zerhouni EA. Pulmonary hamartoma: CT findings. *Radiology* 1986; 160: 313-7.
7. Cosio BG, Villena V, Echave-Sustaeta J, de Miguel E, Alfaro J, Hernandez L, Sotelo T. Endobronchial hamartoma. *Chest* 2002; 122: 202-5.
8. Tajima H, Hayashi Y, Maehara T, Morohoshi T, Imada T, Amano T, Kondoh J. Endobronchial hamartoma treated by an Nd-YAG laser: report of a case. *Surg Today* 1998; 28: 1078-80.
- 9.- Suzuki N, Ohno S, Ishii Y, Kitamura S. Peripheral intrapulmonary hamartoma accompanied by a similar endotracheal lesion. *Chest* 1994; 106: 1291-3.
- 10.- Plantier L, Saidi F, Choukroun G, Boussaud V, Parrot A, Bazelly B, Mayaud C. Une hémoptysie de moyenne abondance révélant un hamartochondrome endobronchique. *Rev Pneumol Clin* 2003; 59: 49-51.
11. Ishibashi H, Akamatsu H, Kikuchi M, Sunamori M. Resection of endobronchial hamartoma by bronchoplasty and transbronchial endoscopic surgery. *Ann Thorac Surg* 2003; 75: 1300-2.
12. Ahn JM, Im JG, Seo JW, Han HS, Yoon HK, Kim WS, Yeon KM. Endobronchial hamartoma: CT findings in three patients. *AJR Am J Roentgenol* 1994; 163: 49-50.
- 13.- Stey CA, Vogt P, Russi EW. Endobronchial lipomatous hamartoma: a rare cause of bronchial occlusion. *Chest* 1998; 113: 254-5.