



Adenomioepitelioma de la mama: reporte de un caso

Dávila-Zablah YJ¹, Rodríguez-Sardin D², Garza-García N³, Garza-Montemayor M⁴

Resumen

El adenomioepitelioma es un tumor de mama raro, se han reportado en la literatura especializada alrededor de 200 casos; se caracteriza por la proliferación de células epiteliales y mioepiteliales. La mayoría de estos tumores tiene comportamiento benigno y en pocas ocasiones degeneración maligna, aunque tienden a recurrir localmente. El objetivo de este artículo es presentar el caso de una paciente con este diagnóstico, sus características por imagen y los hallazgos patológicos, así como la discusión de la literatura sobre esta entidad clínica.

PALABRAS CLAVE: adenomioepitelioma, mama, células mioepiteliales, mastografía, ultrasonido, resonancia magnética.

Anales de Radiología México 2017 Apr;16(2):135-140.

Adenomyoepithelioma of the breast: a case report.

Dávila-Zablah YJ¹, Rodríguez-Sardin D², Garza-García N³, Garza-Montemayor M⁴

Abstract

Adenomyoepithelioma is a rare breast tumor, with around 200 cases reported in the specialized literature; it is characterized by proliferation of epithelial and myoepithelial cells. Most of these tumors present benign behavior, and on rare occasions malignant degeneration, although they tend to recur locally. The purpose of this article is to present the case of a patient with this diagnosis, its image characteristics and pathological findings, and a discussion of the literature on this clinical entity.

KEYWORDS: adenomyoepithelioma; breast; myoepithelial cells; mammogram; ultrasound; magnetic resonance

¹Médico Radiólogo Especialista en Imagen de Mama.

²Médico Radiólogo Especialista en Imagen de Mama.

³Médico Radiólogo Especialista en Imagen de Mama.

⁴Directora y Médico Radiólogo Especialista en Imagen de Mama.

Centro de Imagen Diagnóstica, Hospital San José, Tecnológico de Monterrey. Av. Morones Prieto No. 3000 Pte. Col. Los Doctores, 64710, Monterrey, N.L., México.

Recibido: 27 de enero 2017

Aceptado: 16 de abril 2017

Correspondencia

Yesika Janett Dávila-Zablah
yesika_davila@hotmail.com

Este artículo debe citarse como

Dávila-Zablah YJ, Rodríguez-Sardin D, Garza-García N, Garza-Montemayor M. Adenomioepitelioma de la mama: reporte de un caso. Anales de Radiología México 2017;16(2):135-140.

CASO

Paciente de 41 años de edad, enviada a nuestro Centro de Imagen Diagnóstica de Mama, del Hospital San José, por tumor palpable en la mama izquierda. Sin antecedentes heredo-familiares para cáncer de mama. Se realizaron proyecciones convencionales de mastografía digital (2D) y tomosíntesis (3D), observando el patrón glandular extremadamente denso (tipo d de acuerdo con el *American College of Radiology*); nódulo isodenso, circunscrito y de bordes oscurecidos, en las imágenes 2D de la mama izquierda, que coincidía con el área palpable (señalada con un marcador triangular radiopaco). También se identificó una asimetría focal localizada en la interlinea de los cuadrantes superiores, sin hallazgos asociados (**Figura 1A**). En las imágenes 3D se definió que la asimetría focal correspondía a un tumor irregular, isoden-

so, de márgenes indistintos y el área palpable a un nódulo redondo y circunscrito (**Figura 1B**).

Por ultrasonido se observó, en el radio de las 12:00 h, a 6 cm del pezón, un quiste simple y, adyacente a éste, un tumor irregular de orientación paralela con ecogenicidad heterogénea y reforzamiento acústico posterior, sus márgenes eran microlobulados y angulados. A la aplicación de Doppler color mostró discreta vascularidad periférica; tenía una medida de 2.3 cm. Ambos hallazgos eran palpables y coincidían con lo descrito en la mastografía. Los ganglios axilares eran normales (**Figuras 2-3**). Se categorizó como BI-RADS 4. Se practicó biopsia percutánea de corte con resultado histopatológico de adenomioepitelioma. Se practicaron tinciones de inmunohistoquímica con base de calponina con resultado positivo citoplasmático en el componente de células mioepiteliales y p63

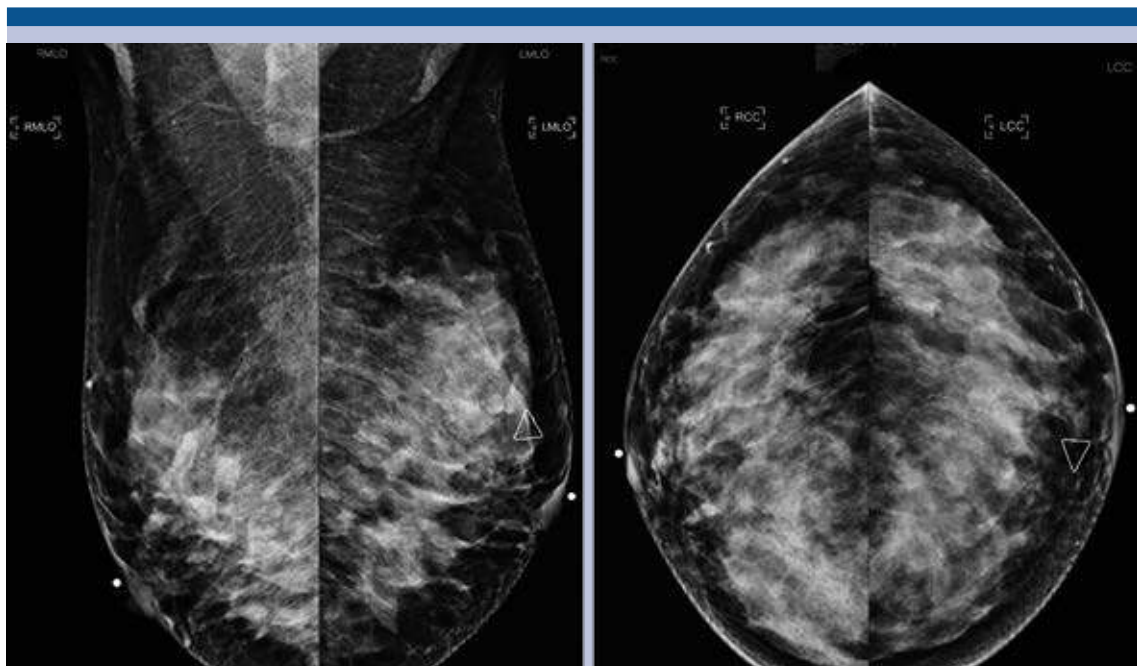


Figura 1. Proyecciones convencionales de mastografía digital. Se observa patrón tipo d. En el área palpable (marcador triangular) se observa un nódulo isodenso, circunscrito y de bordes oscurecidos. Existe también una asimetría focal localizada en la interlinea de los intercuadrantes superiores, sin hallazgos asociados.

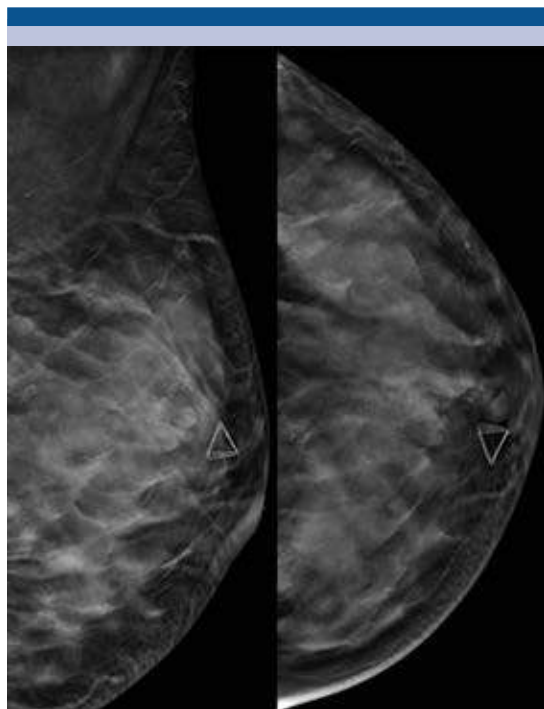


Figura 2. Tomosíntesis. En la mama izquierda: asimetría focal que corresponde a un tumor irregular, isodenso, de márgenes indistintos. En el área palpable: nódulo redondo y circunscrito (marcador triangular).

positivo nuclear en la misma población celular. No se observaron datos histológicos de malignidad como atipia, necrosis y mitosis (**Figura 4**). Posteriormente se realizó biopsia escisional de la lesión obteniendo el mismo resultado histopatológico con bordes libres. Actualmente la paciente se encuentra asintomática.

DISCUSIÓN

El adenomioepitelioma de la mama es un tumor raro que se caracteriza por la proliferación simultánea de células epiteliales y mioepiteliales.¹⁻¹⁹ El primer reporte fue hecho por Hamperl en 1970.^{1-6,8,12,15-17} Se han publicado aproximadamente 200 casos en la literatura especializada, incluyendo casos benignos y malignos.^{1,6} Es más frecuentes en mujeres,^{1-3,10} aunque se han

reportado dos casos en hombres.^{1,2} La mayoría se presentan en personas mayores de 40 años pero el rango de edad varía entre los 16 y los 92 años de edad.^{1,2,5,8,10-13} Todos los casos se han presentado de forma esporádica, ninguno con antecedente familiar.⁴ En un caso se asoció con múltiples tumores estromales gastrointestinales en un paciente con neurofibromatosis tipo 1.²

Clínicamente la mayoría se manifiesta como tumor único palpable;^{1,2,4,5,8} sin embargo un pequeño porcentaje de casos se ha detectado en el tamizado mamario.^{1,8,10} Existe un reporte de bilateralidad.¹ Raramente hay datos clínicos como dolor y descarga por el pezón.^{2,8} Pueden tener cualquier localización pero la mayoría se ubican en la región central y periareolar de la mama.^{1,2,3,8,10} El crecimiento rápido del tumor es una característica que sugiere malignidad.^{3,4} Debido a su baja frecuencia la información sobre sus características radiológicas es limitada.¹⁰

Los hallazgos mamográficos son inespecíficos: tumor circunscrito, denso, redondo o lobulado y, en algunos casos, con márgenes indistintos^{2,5,8,10,11,17} como en nuestro caso. La tomosíntesis fue de utilidad para una mejor caracterización de la lesión.²⁰ Es poco habitual la apariencia quística y las calcificaciones.^{2,5,8,10} La distorsión es poco común pero, cuando está presente, usualmente se asocia con la variante maligna;^{10,11} existe el reporte de un caso donde, mamográficamente, es oculta por tejido denso.¹⁰ La mayoría se ha categorizado como BI-RADS 4.⁵ Por ultrasonido es típico un nódulo sólido, hipoeicoico, bien circunscrito o irregular, de márgenes microlobulados; es posible que muestre refuerzo acústico posterior.^{5,8,10,11} Nuestro caso presentó las últimas tres características descritas, además de márgenes angulados, por lo que la apariencia era sugestiva de malignidad.

La literatura reporta un solo caso con resonancia magnética para la evaluación de un carcinoadenomioepitelioma recurrente en la pared torácica,

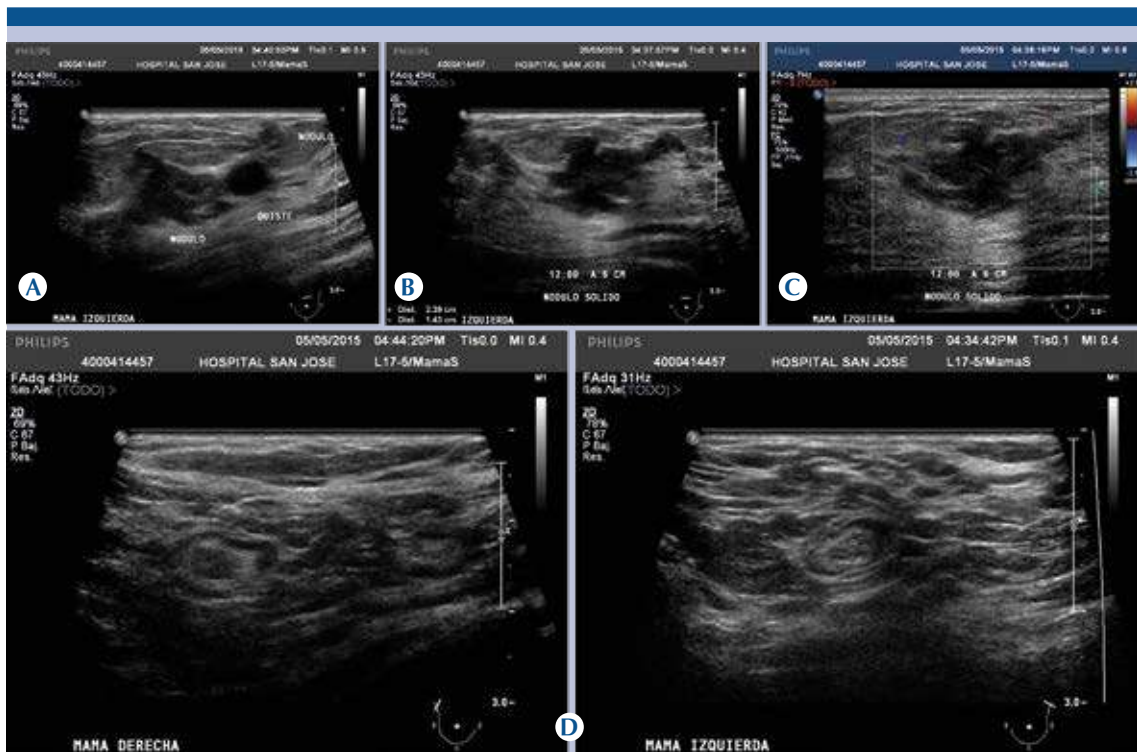


Figura 3. Ultrasonido. **A)** Quiste simple palpable que corresponde con el nódulo circunscrito visto por mastografía. **B)** Tumor irregular de orientación paralela con ecogenidad heterogénea y con reforzamiento acústico posterior, de márgenes microlobulados y angulados, mide 2.3 cm. **C)** Doppler color: discreta vascularidad periférica. **D)** Ganglios axilares normales.

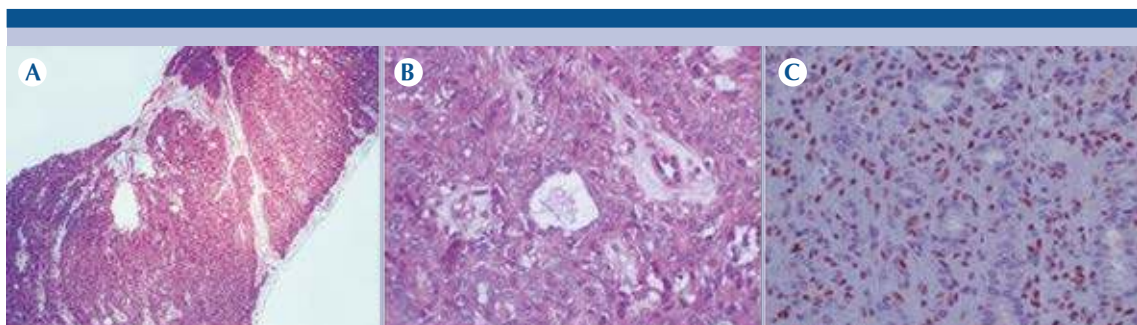


Figura 4. Anatomía patológica. **A-B)** Tinciones de inmunohistoquímica a base de calponina con resultado positivo citoplasmático en el componente de células mioepiteliales. **C)** p63 positivo nuclear en la misma población celular.



donde se mostró un reforzamiento tipo tumor, heterogéneo, con márgenes indistintos y con lavado rápido en la dinámica (curva tipo 3), sugestivo de malignidad.¹⁰ De acuerdo con las características radiológicas el diagnóstico diferencial debe incluir carcinoma ductal invasor, carcinoma medular, mucinoso, filoides, adenoma tubular, necrosis grasa y hemangioma.¹⁰

Debido a que este tumor es una entidad poco común, y a que tiene una naturaleza hiper celular variable, es posible confundir el diagnóstico en la citología, por lo que se recomienda biopsia con aguja de corte para un diagnóstico certero.³ Por anatomía patológica el tamaño varía de 0.3 a 8 cm, con promedio de 2.5 cm.^{2,4,8,12,13} Son tumores redondos, lobulados, bien definidos y firmes.^{2,6,8} Se han descrito prolongaciones papilares (por lo que se pueden considerar como una variante de papiloma intraductal), multinodulares o con cambios quísticos locales.² Se caracterizan por una proliferación bifásica de células columnares o cuboidales, rodeadas de células epiteliales y mioepiteliales, que normalmente están en los lóbulos y conductos mamarios.^{1-5,11,13}

Microscópicamente, la apariencia típica consiste en estructuras acinares compuestas por capas de células epiteliales con citoplasma eosinófilo y una capa de células mioepiteliales periféricas prominentes.^{3,4,6,8} Según su patrón de crecimiento se clasifican en tubular, lobulado o variante de células en huso.^{2-6,9,10,12,13,15} También, existe la combinación de patrones de crecimiento.^{3,9} La mayoría tienen baja actividad mitótica (menos de 3/10 por campo). Se han asociado con metaplasia ósea, condroide, escamosa o apocrina focal.^{4,6,9,12}

El estudio inmunohistoquímico muestra positividad para actina de músculo liso (SMA), p63 y CD10 demuestran la proliferación de células mioepiteliales, mientras que la citoqueratina 5/6 (CK 5/6) y el antígeno carcinoembrionario

son positivos en el componente epitelial ductal.^{2,4-6,8,9,12,14} Biológicamente la mayoría son benignos, la transformación maligna se ha reportado, en 40 casos,^{1-3,5,10-12,14,15,17} que proviene ya sea del componente epitelial o del mioepitelial; en casos más extremos mixto.^{1,3,4,8,10,12,13,16,17} El adenomioepitelioma maligno presenta proteínas positivas de miosina al músculo liso y S-100.^{13,17,18} Se ha reportado asociación con atipia o necrosis.¹² Los diagnósticos diferenciales por patología deben incluir las lesiones proliferativas de la mama, como la adenosis esclerosante, el adenoma tubular con componente epitelial y mioepitelial y el fibroadenoma; cuando se observa la capa de la arquitectura lobulocéntrica se excluye a la adenosis esclerosante y, cuando las capas sólidas son redondas y muestran células en huso, al fibroadenoma y al adenoma tubular.^{4,9,11}

El tratamiento dependerá del comportamiento biológico.⁵ Se recomienda la escisión completa de la lesión para tumores benignos y, para lesiones malignas comprobadas histológicamente, resección amplia con criterio oncológico y estudio del ganglio centinela.^{2,5,13} Se han descrito recurrencias locales (entre los 4 meses y los 5 años de su escisión),^{1-8,10-16} en aproximadamente 25 casos de los 200 reportados en la literatura especializada.¹⁰ El pronóstico de la variedad benigna y de las recurrencias locales es bueno.¹

Las metástasis a distancia son poco frecuentes, aparecen en tumores mayores de 2 cm^{3,10,14} y los sitios de invasión son pulmón, cerebro, hígado y tiroides.^{1-4,6,10,11,13,16} La diseminación es por vía hematológica.^{3,14,15} El pronóstico con metástasis es desfavorable.¹ En algunos casos donde hay recurrencia se utiliza la radioterapia.^{1,13,19} Se ha propuesto la quimioterapia como tratamiento en caso de malignidad.¹ En un caso en el que se reportaron metástasis pulmonares se utilizó quimioterapia y hubo respuesta parcial al tratamiento.⁴ Se desconoce si el uso de la quimioterapia podría prevenir las metástasis.⁴

CONCLUSIÓN

El adenomioepitelioma de la mama es una enfermedad poco frecuente, su forma de presentación clínica es la de un tumor palpable, por lo que se deberán indicar estudios de imagen para determinar sus características y, a pesar de no tener una apariencia radiológica clásica, reconocer criterios de malignidad que orienten a recomendar la biopsia. Su diagnóstico histológico es también todo un reto. Se necesitan más estudios sobre el tratamiento con quimioterapia para determinar su efectividad.

REFERENCIAS

1. Bajpai J., Punatar S., Gupta A., et al. Bilateral adenomyoepithelioma of the Breast. *Journal of Cancer research and Therapeutics* 2013;9:523-525.
2. Yoon J., Chitale D. Adenomyoepithelioma of the Breast. A brief diagnostic review. *Arch Pathol Lab Med* 2013;137:725-729.
3. Howlett C., Mason H., Biswas S. et al. Adenomyoepithelioma of the Breast. Spectrum of Disease with Associated Imaging and Pathology. *AJR* 2003;180:799-803.
4. Rani D., Nath S., Sharma P. et al. Adenomyoepithelioma of the breast. *Hematol Oncol Stem Cell Ther* 2009;2:364-366.
5. Tapia O. Adenomioepitelioma de la mama: Reporte de un Caso. *IntJ.Morphol* 2011;29(3):981-894.
6. Bektaş S., Bahadır B., Dogan B. et al. Adenomyoepithelioma of the breast misdiagnosed as invasive ductal carcinoma. *Turkish Journal of Pathology* 2007;23(2):116-120.
7. Harris, Lippman, Morrow, Osborne: *Enfermedades de la mama*, 2009. Marban. 74-75.
8. Rosen P.: *Patología mamaria Segunda Edición*. Tomo I, 2005. Amolca. 121-137.
9. Satyanarayana V., Gole S: Adenomyoepithelioma a rare breast tumor: case studies with review of the literatura. *The Internet Journal of Pathology* 2016.1-17.
10. Adejolu M., Wu Y., Santiago L. Adenomyoepithelial tumors of the breast: imaging findings with histopathologic correlation. *AJR* 2011;197:184-190.
11. Irshad A., Ackerman S., Pope T. Rare breast lesions: correlation of imaging and histologic features with WHO classification. *Radiographics* 2008;28:1399-1414.
12. Zhang S., Huo L., Arribas E., et al. Adenomyoepithelioma of the breast with associated atypical lobular hyperplasia: a previously unrecognized association with management implications. *Annals of diagnostic pathology* 2015;19:20-23.
13. Rossetti C., Ajaime L., Berlanga V., et al. Adenomyoepithelioma with malignant transformation diagnosed by immunohistochemical analysis: case report. *J Bras Patol Med Lab* 2011;47:535-539.
14. Petrozza V., Pasciuti G., Pacchiarotti A., et al. Breast adenomyoepithelioma: a case report with malignant proliferation of epithelial and myoepithelial elements. *Journal of Surgical Oncology* 2013;11:285.
15. Nadelman C., Leslie K., Fishbein M. Benign metastasizing adenomyoepithelioma of the breast. *Arch Pathol Lab Med* 2006;130:1349-1353.
16. Warrier S., Hwang S., Ghaly M., et al. Adenomyoepithelioma with ductal carcinoma in situ: a case report and review of the literature. *Hindawipublishing corporation* 2013;521417:1-3.
17. Attill S., Saini K., Lakshmaiah C., et al. Malignant adenomyoepithelioma of the breast. *Indian J Surg* 2007;69:1:14-16.
18. Oka K., Sando N., Moriya T., et al. Malignant adenomyoepithelioma of the breast with matrix production may be compatible with one variant form of matrix-producing carcinoma: a case report. *Pathology-research and practice* 2007;203:599-604.
19. Maffini F., Renne G., Plivades R., et al. A rare case of lung metastasis from a malignant adenomyoepithelioma of the breast: histological features and therapeutic implications. *Ecancer* 2013;7:372:1-4.
20. Kim SA, Chang JM, Cho N, Yi A, Moon WK. Characterization of Breast Lesions: Comparison of Digital Breast Tomosynthesis and Ultrasonography. *Korean Journal of Radiology*. 2015;16(2):229-238.