

Broncolitiasis como causa de atelectasia. Un hallazgo broncoscópico inesperado

José Luis Che Morales,* ✉ Arturo Cortés-Télles,* Julio Ceballos Zapata,‡ Hirian Moshe Barrera Pérez‡

* Servicio de Broncoscopía, Hospital Regional de Alta Especialidad de la Península de Yucatán (HRAEPY).

‡ Departamento de Anatomía Patológica, HRAEPY.

Trabajo recibido: 28-II-2013; aceptado: 12-III-2013

RESUMEN. La broncolitiasis es una entidad clínica cuya frecuencia no se conoce con precisión. Comúnmente se origina de un ganglio linfático mediastinal calcificado secundario a procesos granulomatosos crónicos de tipo infeccioso (*v. gr.* tuberculosis, histoplasmosis); en casos aislados puede generar obstrucción de la luz bronquial manifestándose clínicamente como atelectasia. En el presente documento se comparte la experiencia clínica de un paciente tratado como infección recurrente de vías respiratorias bajas. El abordaje diagnóstico sistemático permitió identificar un hallazgo inesperado que originaba la persistencia de atelectasia, motivo por el cual recurrían los síntomas. Este aspecto abre la puerta para reflexionar sobre las causas de atelectasia pulmonar y la conducta terapéutica a seguir.

Palabras clave: Broncolito, broncoscopía flexible, atelectasia.

ABSTRACT. Broncholithiasis is a clinical entity with an unknown frequency. Commonly it originates from a calcified mediastinal lymph node as a response to chronic granulomatous infectious disease (*i.e.* tuberculosis, histoplasmosis); in remote cases, can cause endobronchial obstruction clinically detected as atelectasis. This paper shares the experience of a clinical case that has been treated as recurrent lower respiratory tract infection. The systematic diagnostic approach identified an unexpected finding that originated persistent atelectasis reason why symptoms were recurrent. This aspect can reflect on the causes of pulmonary atelectasis and how should be treated.

Key words: Broncholithiasis, flexible bronchoscopy, atelectasis.

INTRODUCCIÓN

Se define como atelectasia al colapso de una región del tejido pulmonar secundaria a procesos patológicos.¹ Las causas más comunes son: a) atelectasia por resorción, caracterizada por la ausencia de aire adyacente a un proceso obstructivo (tumor, cuerpo extraño); b) adhesiva, por deficiencia de surfactante (casos con síndrome de insuficiencia respiratoria aguda); c) pasiva, *v.gr.*, neumotórax y disfunción diafragmática; d) compresiva, por lesión ocupante intratorácica; e) cicatrizal como consecuencia de zonas fibróticas, y f) dependientes de gravedad, *v. gr.* pacientes inmovilizados.² Una radiografía posteroanterior del tórax permite analizar la posible existencia de una atelectasia mediante la búsqueda de signos directos e indirectos.

Acorde con el Colegio Americano de Radiología los signos directos son: a) agrupamiento de los vasos sanguíneos, b) broncograma aéreo y c) desplazamiento

de la cisura interlobar. Por otro lado, son signos indirectos: a) elevación del diafragma, b) retracción de la tráquea, c) pinzamiento de los espacios intercostales, d) hiperexpansión compensatoria del pulmón adyacente, e) desplazamiento del hilio y f) granuloma cambiante.² La obstrucción al flujo aéreo hacia los segmentos bronquiales más distales, independientemente de la etiología, conlleva a la reabsorción del aire contenido en los alvéolos dado que la presión parcial del gas alveolar disminuye con relación al flujo sanguíneo generando un gradiente de presión positivo que favorece el colapso pulmonar o atelectasia.³

El presente documento tiene como objetivo compartir la experiencia en el diagnóstico de una atelectasia obstructiva, cuya etiología resultó inesperada en un hombre de la sexta década de la vida evaluado en múltiples ocasiones por eventos de neumonía recurrente; recibió diversos esquemas de tratamiento sin mejoría. La anamnesis minuciosa y la reevaluación sistemática de

los estudios de imagenología permitieron identificar la anomalía que esclareció la interrogante en la persistencia de los síntomas.

DESCRIPCIÓN DEL CASO

Paciente masculino de 57 años evaluado por fiebre y disnea. Antecedentes de relevancia: COMBE negativo, exfumador con índice tabáquico menor a 1 paquete/año y diabetes *mellitus* tipo 2 (DM2) tratado con glibenclamida/metformina sin adecuado control. Historia de absceso hepático amebiano que drenó espontáneamente la cavidad pleural derecha a la edad de 30 años, tratado con toracotomía abierta y sonda pleural, con adecuada resolución.

Manifiesta 2 meses con disnea progresiva; en un inicio mMRC 2/4 (del inglés *modified medical research council*), y en las últimas 3 semanas mMRC 3/4. Enfatiza la presencia de tos con expectoración purulenta, fiebre no cuantificada, dolor torácico lateral y posterior izquierdo de tipo pleurítico y pérdida de peso de 2 kg. Había sido valorado por varios facultativos, incluyendo un neumólogo sin mejoría clínica.

Al examen físico tuvo los siguientes signos vitales: TA 120/80, FC 112x', FR 30x', sin fiebre. Dextrostix: 399 mg/dL. Saturación de oxígeno por oximetría de pulso del 95% respirando al aire ambiente. En la exploración del tórax se documentó matidez a la percusión sin aumento significativo de las vibraciones vocales;

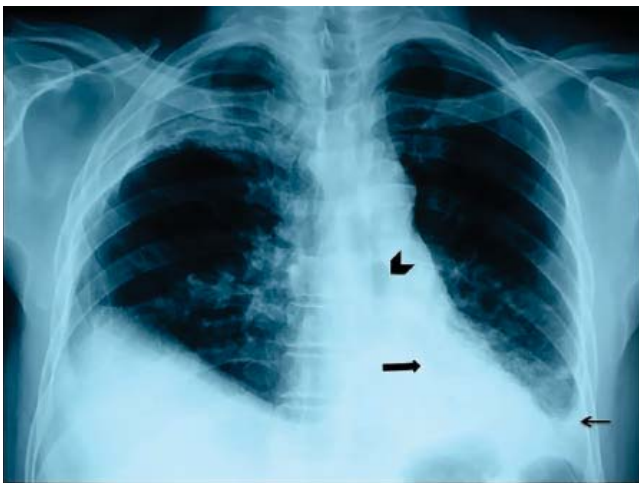


Figura 1. Rx de tórax. El ángulo cardiopulmonar izquierdo denota una opacidad heterogénea con imagen de broncograma aéreo (flecha gruesa) y desplazamiento del hilio pulmonar hacia abajo (cabeza de flecha). Asimismo, opacidad del ángulo costodiafragmático izquierdo (flecha delgada). Los cambios del hemitórax derecho son atribuidos a la secuela quirúrgica del absceso hepático amebiano.

asimismo, disminución de amplexión-amplexación en la región inferior y lateral izquierda del tórax. La radiografía simple del tórax (figura 1) mostró una opacidad homogénea con broncograma aéreo a nivel del ángulo cardiopulmonar izquierdo, aunada a la presencia de signos directos de atelectasia incluyendo: 1) desplazamiento de la cisura mayor hacia el centro y 2) movimiento del hilio pulmonar hacia abajo. Asimismo, obliteración del ángulo costofrénico izquierdo. Con estos datos, el problema fue situado en el lóbulo inferior izquierdo. En el hemitórax derecho destaca la elevación del diafragma, engrosamiento pleural generalizado y calcificaciones en la región basal derecha (cambios vinculados con la historia del absceso amebiano roto a pleura). Se realizó tomografía axial computada de tórax demostrando una zona de consolidación y atelectasia confinada al segmento 10 del lóbulo inferior izquierdo (LII); también fue notable la presencia de hiperdensidades compatibles con calcificaciones mediastinales e intraluminal en la división hacia el bronquio del LII (figura 2), BAAR y cultivo de expectoración negativos.

Al realizar la broncoscopia flexible se encontró una masa intraluminal de superficie nodular, firme y edema de la mucosa adyacente que aparentemente obliteraba el 100% de la luz del bronquio principal izquierdo (figura 3). Se tomaron biopsias cuyo reporte de patología fue inflamación crónica inespecífica. Ante la sospecha de malignidad y el diagnóstico no concluyente, se realizó una segunda broncoscopia, utilizando una pinza fórceps se retiró una masa pétreo de superficie irregular, fétida, con secreciones adheridas en su superficie y en forma de silla de montar (figura 4). El reporte histopatológico final fue fragmento de material calcificado, tamaño 1.5 x 0.4 x 0.9 cm de consistencia pétreo y color café. El epitelio bronquial adherido a la masa mostró metaplasia epidermoide con infiltrado inflamatorio polimorfonuclear intraepitelial; en el estroma subyacente se observaron colonias bacterianas filamentosas que con la tinción de hematoxilina y eosina permitieron observar el fenómeno de *Splendore Hoespli* (material eosinofílico que rodea a un grupo de microorganismos y constituye una reacción localizada antígeno-anticuerpo). El análisis morfológico fue compatible con *Actinomyces* (figura 5).

La evolución del paciente fue favorable, egresó con tratamiento para actinomicosis basado en clindamicina-amoxicilina/ácido clavulánico por 4 meses. Durante la evaluación subsecuente el paciente mostró resolución completa del cuadro clínico caracterizado por remisión de la disnea (mMRC 0) y ausencia de la atelectasia en el lóbulo inferior izquierdo. Actualmente el paciente se ha reincorporado a su trabajo como encargado de mantenimiento.

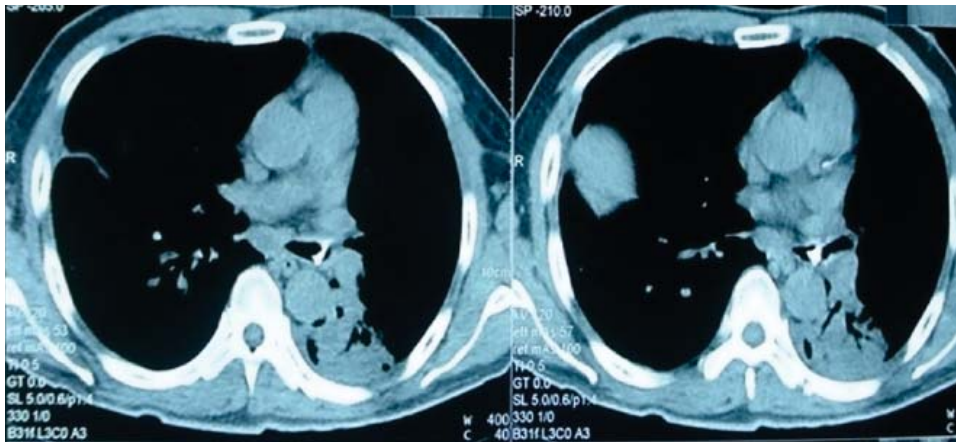


Figura 2.

TAC de tórax que muestra una calcificación en la luz del bronquio principal izquierdo con extensión hacia el bronquio del LII.



Figura 3. Broncolito en bronquio principal izquierdo.

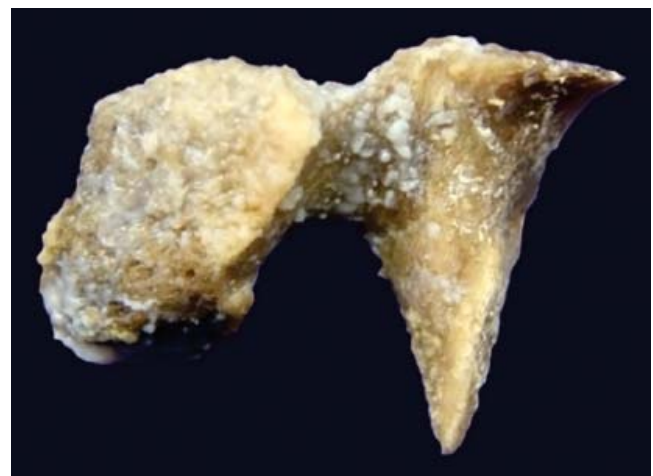


Figura 4. Broncolito. Vista macroscópica.

DISCUSIÓN

El presente caso clínico resulta interesante dado el hallazgo no esperado que generó la atelectasia así como la confirmación histológica de *Actynomyces spp.* y el uso de broncoscopia flexible para lograr extraer el broncolito.

Las causas más frecuentes de la broncolitiasis son tuberculosis e histoplasmosis. En Yucatán, la frecuencia de histoplasmosis se basa en reportes aislados poco confiables. González-Ochoa *et al.*, informaron de la frecuencia de histoplasmosis basado únicamente en la población reactiva a histoplasmina durante la evaluación de nódulos pulmonares identificados mediante radiografía de tórax. Del total de pacientes, 24% fueron reactivos a la histoplasmina.⁴ Recién, Salomón-Grajales *et al.*, analizaron un grupo de 69 personas con sospecha de histoplasmosis; el factor de riesgo central fue la

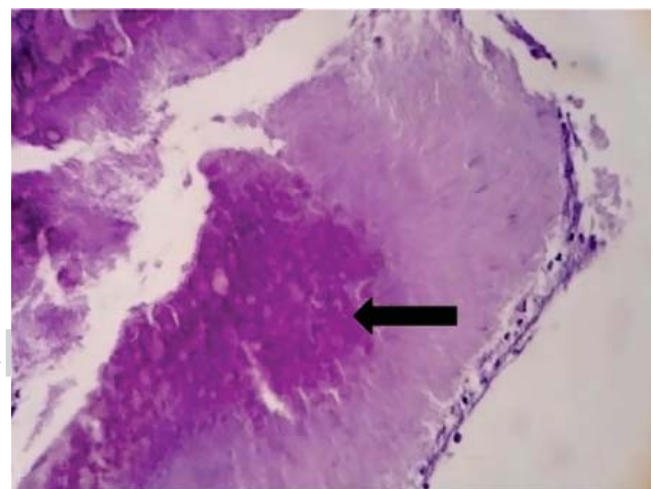


Figura 5. Fotomicrografía que muestra el fenómeno de *Splendore hoeppli* en el broncolito (flecha). Tinción de hematoxilina-eosina. Resolución 40x.

incursión en grutas. Únicamente 32% de los expuestos al inóculo presentaron la combinación de síntomas y niveles de IgM séricos compatibles para histoplasmosis; cabe destacar que todos recibieron tratamiento.⁵ Estos reportes no muestran la prevalencia real de la micosis en el estado; sin embargo, debe tomarse en consideración a la histoplasmosis cuando se enfrente un caso con factores de riesgo que orienten hacia el diagnóstico.

Dado que el clima de la península de Yucatán es apropiado para la supervivencia del hongo, indudablemente se requieren de análisis epidemiológicos confiables que orienten con precisión hacia la frecuencia real de la enfermedad. Con los antecedentes citados, es complicado establecer la frecuencia de asociación entre broncolitiasis e histoplasmosis en nuestro estado, aspecto que fortalece la presentación del caso.

La broncolitiasis comúnmente se origina de un ganglio linfático calcificado que erosiona la pared del bronquio y emerge a su luz;⁶ sin embargo, también puede formarse en la luz bronquial (*in situ*) debido a la aspiración de cuerpos extraños. Una causa común de calcificaciones mediastinales es la infección por histoplasmosis; ésta se adquiere por vía respiratoria y migra desde pulmón a los ganglios regionales dejando granulomas que con el paso del tiempo se calcifican. Con ello en mente, Weed *et al.*,⁷ demostraron la presencia de *Histoplasma capsulatum* como causa de broncolitiasis en el interior de 5 de 12 broncolitos procesados con tinciones de plata. La inflamación granulomatosa originada en los ganglios por el hongo, muy similar a la ocasionada por tuberculosis, origina dichas calcificaciones que erosionan tejidos subyacentes. La erosión puede ocurrir por 3 factores: 1) latidos cardíacos, 2) mecánica de la deglución y 3) movimientos respiratorios.⁷⁻¹⁰ Se localizan con mayor predominio en el bronquio principal derecho (64% de los casos informados).¹² Los síntomas advertidos son: tos no productiva (66%) y hemoptisis (52%); únicamente 5% son asintomáticos.¹⁰ Entre los hallazgos de radiología se describen imágenes compatibles con atelectasia (22%) y neumonía postobstructiva (78%).^{8,13,14}

Debido a la evidencia clínico-radiológica del caso se justificó realizar una broncoscopia. Dicho procedimiento es relevante en el diagnóstico y tratamiento de broncolitiasis. Existen dos modalidades broncoscópicas: 1) rígida y 2) flexible. La broncoscopia rígida confiere una tasa de éxito del 67%. El factor central involucrado en dicho resultado es el canal de trabajo del broncoscopio, pues permite extraer piezas de mayor volumen.¹⁵ No obstante, ante la falta del recurso se sugiere emplear la broncoscopia flexible, cuyo rendimiento terapéutico es del 33%.^{11,16,17}

Con el objetivo de mejorar la efectividad han emergido novedosas técnicas como el láser Nd-YAG, útil en la fragmentación de las piezas calcificadas facilitando su remoción a través de la modalidad flexible.¹⁸ El proceso de extracción no es inocuo, por lo cual es imperativo analizar de forma individual los riesgos inherentes al procedimiento incluyendo hemorragia, desarrollo de fístula e inclusive la muerte.¹³ Olson *et al.*, revisaron los procedimientos endoscópicos realizados a pacientes con broncolitiasis en la Clínica Mayo durante 40 años. El objetivo general fue conocer la seguridad y la eficacia de dicho procedimiento. Se identificaron 95 pacientes con 127 broncolitos visibles broncoscópicamente. El número de intentos para extraer los litos fue mayor cuando se encontraban libres en la luz bronquial (entre 1 y 18 intentos). Por otro lado, la adherencia laxa a la pared bronquial permitió la extracción en el 100% de los casos empleando ambas modalidades (rígida y flexible). Finalmente, lograron identificar factores relacionados con mayor dificultad para la broncolitotomía endoscópica, entre ellos: 1) adherencia firme a la pared, b) incapacidad para asir la pieza y c) hallazgo accidental sin evaluación completa.¹⁴

La presencia de DM2 aumenta el 20% de riesgo para desarrollar clínicamente actinomicosis.¹⁸ Un estado de hiperglucemia induce disfunción de la inmunidad celular por deterioro de la quimiotaxis, adhesión, fagocitosis y la capacidad bactericida favoreciendo la presencia de procesos infecciosos. La variante intratorácica de la actinomicosis (neumonía, empiema y absceso) constituye 15% de todos los casos.¹⁹ La presentación endobronquial es rara y hay pocos datos publicados; más aún, no se conoce la frecuencia de *Actinomyces spp.* en broncolitiasis, únicamente se informan series de casos aislados.²⁰ *Actinomyces spp.* es comensal en cavidad oral y tracto gastrointestinal; para subsistir, requiere la presencia de otras bacterias que generen un ambiente anaeróbico.¹⁹ Esta situación precipita una respuesta inflamatoria granulomatosa con formación de fibrosis.^{6,20,21} Es factible que el paciente en cuestión haya tenido aspiraciones de contenido oral o gastrointestinal permitiendo el depósito de *Actinomyces spp.* en la vía respiratoria inferior, situación que favoreció la colonización del broncolito. El proceso inflamatorio subsecuente obstruyó la vía aérea de manera progresiva, acumulando secreciones bronquiales y el desarrollo de procesos infecciosos recurrentes.²²

Dada la confirmación histopatológica de *Actinomyces spp.* en el epitelio bronquial se propuso tratamiento antimicrobiano con clindamicina y amoxicilina/ácido clavulánico por 4 meses.²³ Esta conducta terapéutica es respaldada por informes previos que sugieren retirar el broncolito e iniciar antibióticos con duración hasta por 12 meses.^{19,20}

CONCLUSIÓN

Es inobjetable el valor que proporcionan los estudios paraclínicos; no obstante, la falta de un análisis estructurado puede vincularse con la omisión de aspectos cruciales que inciden en las decisiones clínicas. El diagnóstico final permite reflexionar sobre las etiologías menos frecuentes de padecimientos comunes. Es prudente considerar la broncolitiasis como un diagnóstico diferencial, principalmente cuando existen calcificaciones mediastinales o bronquiales asociados a datos clínicos y radiológicos.

Agradecimientos

Los autores agradecen al ingeniero en electrónica Baltazar Cortés Télles por su apoyo en la edición de imágenes.

REFERENCIAS

- Husain A. *The lung. Robbins and cotran pathologic basics of disease*. 8 ed. USA:Elsevier-Saunders;2010.
- Woodring JH, Reed JC. *Types and mechanisms of pulmonary atelectasis*. J Thorac Imaging 1996;11:92-108.
- Oliva-Hernández C, Suárez-López de Vergara RG, Galván-Fernández C, Marrero-Pérez CL. *Atelectasia. Bronquiectasias. Protocolos diagnósticos y terapéuticos de la AEP: neumología*. Protocolos actualizados al 2008. España: Asociación Española de Pediatría; 2009: 9-24.
- González-Ochoa A, Esquivel-Medina E, Caceres M. *Investigación de la reactividad a la histoplasmina, tuberculina y coccidioidina relacionada con catastro torácico en Yucatán*. Rev Inst Sal Enf Trop 1948;9:55.
- Salomon-Grajales J, Quintal-B K, Monter-R F, Rivera-Romero A. *Primer brote de histoplasmosis relacionado con las grutas ubicadas en el municipio de Kaua, Yucatán*. Rev Sal Quintana Roo 2009;2:13-16.
- Kim TS, Han J, Koh WJ, et al. *Endobronchial actinomycosis associated with broncholithiasis: CT findings for nine patients*. AJR Am J Roentgenol 2005;185:347-353.
- Weed L, Andersen H. *Etiology of broncholithiasis*. Chest 1960;37:270-277.
- Jiménez-Quijano AE. *Broncolitiasis*. Rev Colomb Neumol 2010;22:11-16.
- Ferguson TB. *Bacterial infection of the lung*. In: Shiel TW. *General thoracic surgery*. Philadelphia, PA: Lea & Febiger;1983.p.563-588.
- Cole FH, Cole FH Jr, Khandekar A, Watson DC. *Management of broncholithiasis: is thoracotomy necessary?* Ann Thorac Surg 1986;42:255-257.
- Dixon GF, Donnerberg RL, Schonfeld SA, Whitcomb ME. *Advances in the diagnosis and treatment of broncholithiasis*. Am Rev Respir Dis 1984;129:1028-1030.
- Potaris K, Miller DL, Trastek VF, Deschamps C, Allen MS, Pairolero PC. *Role of surgical resection in broncholithiasis*. Ann Thorac Surg 2000;70:248-251.
- Moersch HJ, Schmidt HW. *Broncholithiasis*. Ann Otol Rhinol Laryngol 1959;68:548-563.
- Olson E, Utz JP, Prakash UB. *Therapeutic bronchoscopy in broncholithiasis*. Am J Respir Crit Care Med 1999;160:766-770.
- Ariel I, Breuer R, Kamal NS, Ben-Dov I, Mogel P, Rosenmann E. *Endobronchial actinomycosis simulating bronchogenic carcinoma. Diagnosis by bronchial biopsy*. Chest 1991;99:493-495.
- Arrigoni, MG, Bernatz PE, Donoghue FE. *Broncholithiasis*. J Thorac Cardiovasc Surg 1971;62:231-237.
- Trastek VF, Pairolero PC, Ceithaml EL, Piehler JM, Payne WS, Bernatz PE. *Surgical management of broncholithiasis*. J Thorac Cardiovasc Surg 1985;90:842-848.
- Miks VM, Kvale PA, Riddle JM, Lewis JW Jr. *Broncholith removal using the YAG laser*. Chest 1986;90:295-297.
- Prevención, diagnóstico y tratamiento de la actinomycosis en el adulto. Guía de Práctica Clínica. México: IMSS; 2010.
- Abreu A, El-Chemaly S, Fertel DP. *Endobronchial actinomycosis associated with a foreign body aspiration. Case report*. Chest 2003;124(Suppl):271-272.
- Boujaoude Z, Aboujaoude RN, Pratter MR, et al. *Actinomyces in a broncholith; chicken vs. egg. Case report*. Chest 2003;124(Suppl):270-271.
- Seo JB, Lee JW, Ha SI, Park JW, Jeong SH, Park GY. *Primary endobronchial actinomycosis associated with broncholithiasis*. Respiration 2003;70:110-113.
- Song JU, Park HY, Jeon K, Um SW, Kwon OJ, Koh WJ. *Treatment of thoracic actinomycosis: a retrospective analysis of 40 patients*. Ann Thorac Med 2010;5:80-85.

✉ Correspondencia:

Dr. José Luis Che-Morales,
Servicio de Broncoscopia, Departamento de Neumología.
Hospital Regional de Alta Especialidad
de la Península de Yucatán km. 8.5,
Carretera Mérida-Cholul s/n, Col. Maya. Mérida,
Yucatán, México, 97134.
Tel: 01 999 9427600. ext: 54302
Correo electrónico: cushingsx@hotmail.com

Los autores declaran no tener conflictos de interés.