

REPORTE DE CASO

Aspergiloma pulmonar en paciente con síndrome de sobreposición: Reporte de caso

Pulmonary aspergiloma in patient with overposition syndrome:
Case´s report.

Aspergiloma pulmonar em paciente com síndrome de sobreposição:Relato de caso

Edward Jassir Rozo-Ortiz ¹, Ledmar Jovanny Vargas-Rodríguez ^{1*},
Milena Brigitte Agudelo-Sanabria ¹

¹ Hospital San Rafael, Tunja, Colombia.

*Correspondencia: Dirección: Diagonal 69 a # 3-20 Muiscas, Tunja, Colombia.

Celular: 3222907708. Correo electrónico: lejovaro@gmail.com

Fecha de recibido: 11-22-2018

Fecha de aceptación: 02-11-2019

Citar este artículo así:

Roza-Ortiz EJ., Vargas-Rodríguez LJ, Agudelo-Sanabria MB. Aspergiloma pulmonar en paciente con síndrome de sobreposición: Reporte de caso. Revista Investig Salud Univ Boyacá. 2019;6 (1): 188-198. doi: <https://doi.org/10.24267/23897325.303>



RESUMEN

Introducción. La infección por *Aspergillus spp.* representa un reto diagnóstico y terapéutico para el clínico, puesto que existe un número aproximado de 180 especies. El pulmón es el principal órgano afectado por el *Aspergillus* debido a la alta capacidad esporulativa de este hongo y a que sus conidias son lo suficientemente pequeñas para poder alcanzar el alveolo.

Caso. Mujer de 41 años de edad con antecedente de lupus eritematoso sistémico, ingresó con un cuadro de disfagia, en el cual se confirmó la presencia de síndrome de sobreposición mediante perfil inmunológico. Posteriormente, mediante estudio imagenológico, realizado por tener tos y disnea, se encontró la presencia de una masa ovoidea en hemitórax derecho y al realizar una fibrobroncoscopia se evidenció que dicha lesión era compatible con un aspergiloma, por lo que se dio manejo antifúngico con una evolución clínica adecuada.

Conclusión. El aspergiloma se presenta como una masa voluminosa constituida por filamentos miceliales, la cual se puede confundir con múltiples patologías principalmente de tipo tumoral, por lo que es necesario realizar biopsia de la misma.

Palabras clave: aspergilosis pulmonar, *aspergillus*, autoinmunidad, enfermedades autoinmunes, enfermedades pulmonares fúngicas.

ABSTRACT

Introduction. For clinicians, *Aspergillus spp.* infection represents a diagnostic and therapeutic challenge, since there are around of 180 species. Lung is the main affected organ by *Aspergillus* infection due to the high sporulative capacity of this fungus, and because its conidia are small, enough to reach the alveolus.

Case. A 41-years-old patient with a history of systemic lupus erythematosus, was admitted with dysphagia, and an immunological pool confirmed the presence of an overlap syndrome. Later, due to symptoms of cough and dyspnea, an ovoid mass was found by imaging and fibrobronchoscopy, which showed that this lesion was compatible with aspergilloma, so antifungal therapy was given with an adequate clinical progression.

Conclusions. Aspergilloma is a voluminous mass constituted by mycelial filaments, which can be confused with multiple pathologies, mainly of the tumor type, which is why it is necessary to perform a biopsy of it.

Keywords: pulmonary aspergillosis, *aspergillus*, autoimmunity, autoimmune diseases, fungal lung diseases.

RESUMO

Introdução. As infecções causadas pelo fungo *Aspergillus spp.* representam um desafio diagnóstico e terapêutico para o clínico, uma vez que existe um número aproximado de 180 espécies. O pulmão é o principal órgão afetado por *Aspergillus* devido à alta capacidade esporulativa deste fungo, pois seus conídios são pequenos o suficiente para atingir o alvéolo.

Caso. Mulher de 41 anos com história de lúpus eritematoso sistêmico, foi admitida com disfagia, a presença da síndrome de sobreposição foi confirmada pelo perfil imunológico. Posteriormente, por meio de um estudo de imagem, realizado devido à tosse e dispnéia, foi encontrada presença de massa ovóide no hemitórax direito e, ao realizar uma fibrobroncoscopia, foi demonstrado que a lesão era compatível com um aspergiloma, de modo que o manejo antifúngico foi dado com uma evolução clínica adequada.

Conclusão. O aspergiloma é apresentado como uma massa volumosa constituída por filamentos miceliais, que podem ser confundidos com múltiplas patologias principalmente do tipo tumoral, sendo necessária a realização de uma biópsia do mesmo.

Palavras-chave: aspergilose pulmonar, *Aspergillus*, autoimunidade, doenças autoimunes, doenças pulmonares fúngicas.

INTRODUCCIÓN

El término aspergiloma pulmonar hace referencia a la presencia de una masa sólida constituida por filamentos miceliales, dentro de la cavidad intratorácica; usualmente afecta el parénquima pulmonar y raramente la pleura o los bronquios (1).

Esta es una rara enfermedad que se produce por distintas especies de *Aspergillus*, principalmente por *A. fumigatus*. Estos microorganismos se encuentran frecuentemente en el medio ambiente, habitan al aire libre; se desarrollan en materiales orgánicos como la tierra, fertilizantes, alimentos, plantas en descomposición, y en el suelo, como agentes saprofitos (2, 3).

Para el clínico, estas micosis representan un reto diagnóstico y terapéutico, puesto que existe un número aproximado de 180 especies de hongos; además, el aspergiloma dificulta el diagnóstico, puesto que imita otras patologías especialmente algunos tumores (4).

A continuación se presenta el reporte de caso de una paciente con aspergiloma asociado a síndrome de sobreposición.

REPORTE DE CASO

Una mujer de 41 años, procedente de Santana, Boyacá, que labora en oficios varios, incluida

la agricultura, con antecedente no claro de Lupus Eritematoso Sistémico (LES), hipotiroidismo e hipertensión arterial, por lo que venía en manejo con azatioprina, levotiroxina, prednisolona, losartan, carbonato de calcio y ácido fólico. Ingresó a urgencias con cuadro clínico de 3 meses de evolución consistente en disfagia para sólidos y líquidos, asociada a astenia, adinamia, mialgias y picos febriles. Al examen físico se evidenciaba xeroderma generalizado, lesiones en sal y pimienta en tórax e hipotrofia muscular sugiriendo esclerodermia, por lo que se empezó manejo con corticoides y se solicitó perfil inmunológico, el cual mostró un síndrome de sobreposición con *Anti-JO* y *Anti-RO* positivos, mientras que los *Anticuerpos antinucleares*, *Anti-dna*, *Anti-scl70*, *Anti-rnp*, *Anti sm*, *anti-la* estaban negativos. Adicionalmente, la endoscopia de vías digestivas altas (EVDA) reportó gastritis crónica atrófica y un esofagograma dentro de límites normales.

Durante la hospitalización persistía con mialgias y adinamia, a pesar del manejo instaurado; además, presentó compromiso renal, atrofia de la lengua con pérdida completa de la deglución, ptosis palpebral izquierda, disartria y cuadráparia, por lo que fue valorada por el servicio de neurología, donde dejan sospecha diagnóstica de mononeuritis múltiple y solicitan estudios, entre estos, una tomografía de cuello que evidenció ocupación de espacio en el antro maxilar

izquierdo cuyas características son sugestivas de sinusitis crónica de probable origen micótico.

Se realizó electromiografía (EMG) y velocidad de conducción nerviosa (VCN), con lo cual se documentó pérdida de unidades motoras funcionales en las cuatro extremidades; además, se practicó una biopsia de músculo gastronemio y nervio crural, que reportó un proceso inflamatorio crónico (miopático) y vasculitis linfocítica (con predominio de CD8+), dando el diagnóstico de colagenosis.

Al séptimo día de estancia intrahospitalaria la paciente presentó deterioro clínico dado por tos, dolor pleurítico, fiebre, disnea, edema y ortopnea, por lo cual se empezaron estudios de posible foco infeccioso con radiografía de tórax que mostró masa de forma ovoidea con bordes bien definidos de aproximadamente 4 centímetros en hemitórax derecho (figura 1); junto a esto, se solicitó un ecocardiograma que reportaba hipertrofia concéntrica, disfunción diastólica de ventrículo derecho, insuficiencia tricúspide grado I/IV e hipertensión pulmonar leve con fracción de eyección ventricular izquierda (FEVI) de 75%.



Figura 1. Radiografía de tórax que evidencia masa ovoidea localizada en hemitórax derecho.

Se realizó tomografía computarizada (TC) de tórax, contrastada (figura 2), que reportó masa pulmonar localizada en el segmento anterior del lóbulo superior derecho de 36 mm de diámetro, con realce posterior a la administración de medio de contraste, sugiriendo un cáncer bronquiolo alveolar o un pseudotumor inflamatorio.



A

B

Figura 2. Tomografía computarizada de tórax contrastado masa pulmonar localizada en el segmento anterior del lóbulo superior derecho de 36 mm de diámetro, con realce posterior a la administración de medio de contraste. A. Corte axial con reconstrucción tridimensional.. B. Corte coronal con reconstrucción tridimensional.

Por los resultados obtenidos en el estudio imagenológico, se decidió realizar una fibrobroncoscopia con biopsia y lavado bronquial que reportó la presencia de edema, eritema y estigmas de sangre en el segmento anterior del lóbulo superior derecho con disminución de su luz; además, presentó sangrado en ambos lóbulos inferiores y lingulares, recuento celular de histiocitos 16%, neutrófilos 82% y linfocitos 2%, tinción de Gram, baciloscopia e hidróxido de potasio (KOH) negativo, pero en el cepillado alveolar se evidenciaban hifas tabicadas a 45°.

Se consideró que la paciente cursaba con un aspergiloma pulmonar y se dio manejo intrahospitalario con voriconazol (200 mg cada 12 horas por 45 días), con lo que se evidenció mejoría y desaparición de su sintomatología respiratoria.

Además, la paciente requirió manejo fisioterapéutico, gracias al cual mejoró su fuerza muscular y se controló la sintomatología del síndrome de sobreposición.

Dos meses después de terminado el tratamiento, se realizó radiografía de tórax de control que evidenció persistencia de la masa ovoide de bordes bien definidos en lóbulo superior derecho (**Figura 3**), por lo cual, la paciente fue valorada por el servicio de cirugía de tórax; en esta instancia se consideró que no se beneficiaría con manejo quirúrgico puesto que se encontraba asintomática, que había recibido el manejo adecuado y, adicionalmente, que tenía múltiples comorbilidades. Así, se decidió continuar manejo y seguimiento ambulatorio.



Figura 3. Masa ovoidea en hemitórax derecho.

Consideraciones éticas. De acuerdo con lo establecido en la resolución 8430 de 1993, el presente reporte contó con el debido consentimiento informado ocultando la identidad de la paciente, para lo cual se tomaron datos sociodemográficos, de la evolución clínica, de los estudios diagnósticos (paraclínicos e imagenológicos) y de los tratamientos administrados.

DISCUSIÓN

Las masas pulmonares están asociadas a múltiples entidades etiológicas, entre ellas algunas poco frecuentes, como en este caso, una infección micótica crónica (5).

El pulmón es el principal órgano afectado por el *Aspergillus*; la alta capacidad esporulativa y el pequeño tamaño de sus conidias le permite alcanzar el alveolo (6).

Se estima que la aspergilosis pulmonar crónica afecta a 1,2 millones de personas en el mundo, siendo más frecuente en Asia y África. El aspergilloma es una manifestación grave de esta patología y su incidencia no ha sido precisada (4).

Hay múltiples factores de riesgo que facilitan el desarrollo de esta patología, entre los que se encuentra una cavitación preexistente causada por otra enfermedad como tuberculosis (7), la inmunosupresión por uso de corticosteroides (8) y vivir en área rural (9, 10).

Esta entidad patológica presenta muchas manifestaciones clínicas; dentro de los síntomas más frecuentes se encuentran fiebre, dolor pleurítico, hemoptisis, tos y disnea (11), de los cuales, la mayoría se exhibió en el caso presentado.

Radiológicamente, muestra una imagen característica consistente en una lesión única, con opacidad uniforme, redondeada, con una media luna clara que rodea su parte superior (4). El diagnóstico se puede realizar de distintas formas, entre las que se encuentra la medición de galactomanano (GM), un polisacárido presente en la pared celular de *Aspergillus spp*, este procedimiento también

se ha utilizado para medir la respuesta terapéutica y el valor pronóstico del paciente infectado (12); otra opción es el dispositivo de flujo lateral de *Aspergillus* (LFD) para pacientes con leucemias e infección por *Aspergillus spp*, aunque se determinó que la sensibilidad de este dispositivo es baja (13); finalmente, se encuentra la PCR (reacción en cadena de la polimerasa) que tiene una precisión diagnóstica moderada (sensibilidad 80.5%) y confiere un alto valor predictivo negativo (VPN). La combinación de los biomarcadores detecta diferentes aspectos de la enfermedad, por tanto, dicha combinación los hace más útiles (14, 15).

El diagnóstico definitivo se realiza mediante los estudios histopatológicos como la biopsia, la cual permite visualización directa del microorganismo (16).

El tratamiento se puede administrar por vía oral, intravenosa o aplicación directa. El voriconazol es la primera línea, puesto que muestra una eficacia superior en un 13% comparado con otros antimicóticos, además de que disminuye el riesgo de invasión extrapulmonar (17); se recomienda la administración de 6 a 12 semanas (10).

Finalmente, la resección quirúrgica puede ser útil en lesiones contiguas a grandes vasos, cuando producen hemoptisis y lesiones que erosionan el hueso (10).

Se ha determinado que existen varios factores que predicen la mortalidad, entre los que se encontraron:

concomitancia con tuberculosis, proteína C reactiva (PCR) elevada, albúmina baja, poca actividad y aspergilosis pulmonar bilateral (18, 19). Sin embargo, el aspergiloma único es una manifestación de la aspergilosis pulmonar crónica y tiene un pronóstico favorable, pues presenta evolución lenta y responde al manejo con antifúngicos (10).

Se puede concluir que esta es una patología micótica pulmonar crónica, con mayor prevalencia en Asia y África que se presenta, principalmente, en pacientes con inmunosupresión (consumo de corticoides, enfermedades autoinmunes, etc.) y residentes en área rural. Imagenológicamente, se puede confundir con otras entidades, principalmente de tipo tumoral, por lo que es recomendable confirmar mediante histopatología. El tratamiento con antimicóticos es efectivo y solo se realiza manejo quirúrgico en ocasiones especiales.

FINANCIACIÓN

Los autores.

CONFLICTOS DE INTERÉS

Los autores no refieren conflictos de interés.

AGRADECIMIENTOS

A los especialistas del servicio de medicina interna

del Hospital San Rafael de Tunja, por su colaboración en la atención y seguimiento del paciente durante su estancia intrahospitalaria.

REFERENCIAS

1. Smith L, Denning D. Underlying conditions in chronic pulmonary aspergillosis, including simple aspergilloma. *Eur. Respir. J.* 2011;44:1–8. <https://doi.org/10.1183/09031936.00054810>
2. Guyatt GH, Oxman AD, Schunemann HJ, Tugwell P, Knottnerus A. GRADE guidelines: a new series of articles in the *Journal of Clinical Epidemiology*. *J Clin Epidemiol.* 2011;64 (3):380–2. <https://doi.org/10.1016/j.jclinepi.2010.09.011>
3. Panackal AA, Li H, Kontoyiannis DP, et al. Geoclimatic influences on invasive aspergillosis after hematopoietic stem cell transplantation. *Clin Infect Dis.* 2010;50 (8):1588–97. <https://dx.doi.org/10.1086%2F652761>
4. Maturu VN, Agarwal R. Reversed halo sign: a systematic review. *Respir Care.* 2014;59:1440–9. <https://doi.org/10.4187/respcare.03020>
5. C. Pohl, L. Jugheli, F. Haraka, et al, Pulmonary aspergilloma: a treatment challenge in sub-Saharan Africa, *PLoS Negl. Trop. Dis.* 2013;7:2352-10. <https://doi.org/10.1371/journal.pntd.0002352>
6. Valle J, González F, Álvarez J, Valdés L. La aspergilosis pulmonar invasiva en la enfermedad pulmonar obstructiva crónica. *Rev Med Chile.* 2010;138:612-620. <https://scielo.conicyt.cl/pdf/rmc/v138n5/art13.pdf>
7. Bustamante B, Denning D, Campos E. Serious fungal infections in Peru. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis.* 2017;36(6):943-948. <https://doi.org/10.1007/s10096-017-2924-9>
8. Kaya S, Gençlioğlu E, Sönmez M, Köksal S. The importance of risk factors for the prediction of patients with invasive pulmonary aspergillosis. *Rev Assoc Med BRAs.* 2017;63(9):764-770. <https://doi.org/10.1590/1806-9282.63.09.764>
9. Jhun BW, Jung WJ, Hwang NY, Park HY, Jeon K, Kang E, et al. Risk factors for the development of chronic pulmonary aspergillosis in patients with nontuberculous mycobacterial lung disease. *PLoS ONE.* 2017;12(11):1887-16. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0188716>
10. Patterson TF, Thompson GR, Denning DW, Fishman JA, Hadley S, Herbrecht R, et al. Practice Guidelines for the Diagnosis and Management of Aspergillosis: Update by the Infectious Diseases Society of America. *Clinical Infectious Diseases.* 2016; 63 (1): 1 – 60. <https://doi.org/10.1093/cid/ciw326>
11. Taccone et al. Epidemiology of invasive as-

pergilliosis in critically ill patients: clinical presentation, underlying conditions, and outcomes. *Critical Care*. 2015;19:7-15. <https://dx.doi.org/10.1186%2Fs13054-014-0722-7>

12. Kovanda LL, Desai AV, Hope WW. Prognostic value of galactomannan: current evidence for monitoring response to antifungal therapy in patients with invasive aspergillosis. *J Pharmacokinetic Pharmacodyn*. 2017;8:1007–15. <https://doi.org/10.1007/s10928-017-9509-1>

13. Metan G, et al. Performance of Galactomannan Antigen, Beta-d-Glucan, and Aspergillus-Lateral-Flow Device for the Diagnosis of Invasive Aspergillosis. *Indian J Hematol Blood Transfus*. 2017;33(1):87-92. <https://doi.org/10.1007/s12288-016-0653-3>

14. Cruciani M, et al. Polymerase chain reaction blood tests for the diagnosis of invasive aspergillosis in immunocompromised people. *Cochrane Database Syst Rev*. 2015;7;(9):551-21. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD009551.pub2>

15. Aguado JM, Vazquez L, Fernandez-Ruiz M, et al. Serum galactomannan versus a combination of galactomannan and polymerase chain reaction-based Aspergillus DNA detection for early therapy of invasive aspergillosis in highrisk hematological patients: a randomized controlled trial. *Clin Infect Dis*. 2015;60:405–415. <https://doi.org/10.1093/cid/ciu833>

[org/10.1093/cid/ciu833](https://doi.org/10.1093/cid/ciu833)

16. Sampsonas F, Kontoyiannis DP, Dickey BF, Evans SE. Performance of a standardized bronchoalveolar lavage protocol in a comprehensive cancer center: a prospective 2-year study. *Cancer* 2011; 117:3424–33. <https://dx.doi.org/10.1002%2Fncr.25905>

17. Maertens JA, Raad II, Marr KA, et al. Isavuconazole versus voriconazole for primary treatment of invasive mould disease caused by Aspergillus and other filamentous fungi (SECURE): a phase 3, randomised-controlled, non-inferiority trial. *Lancet* 2016;387:760–9. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(15\)01159-9](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(15)01159-9)

18. Lowes D, Al-Shair K, Newton PJ, Morris J, Harris C1 Rautemaa-Richardson R, et al. Predictors of mortality in chronic pulmonary aspergillosis. *European Respiratory Journal*. 2017; 49 (3): 160 – 15. <https://doi.org/10.1183/13993003.01062-2016>

19. Salzer HJ, Cornely OA. Awareness of predictors of mortality may help improve outcome in chronic pulmonary aspergillosis. *European Respiratory Journal*. 2017; 49 (16): 205 - 8. <https://doi.org/10.1183/13993003.02520-2016>



Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Reconocimiento-NoComercial 4.0 Internacional