

Cartas Científicas

Hipoglucemias como presentación atípica de un tumor pleural

Hypoglycemia as an Atypical Presentation of a Pleural Tumor

Estimado Director:

Los tumores fibrosos pleurales son neoplasias poco comunes (2,8 casos por 100.000 habitantes)¹, que comprenden un grupo heterogéneo de tumores pleurales primarios derivados de células submesoteliales con características blásticas y mesenquimatosas. Un pequeño porcentaje de los pacientes desarrollan hipoglucemias, normalmente mal controladas y mantenidas debido en la mayoría de los casos a la secreción de factores de crecimiento insulin-like por las células fibrosas del tumor. Dicha entidad es conocida como el síndrome de Doege-Potter^{2,3}.

Presentamos el caso de un varón de 61 años exfumador de 60 paquetes-año sin otros antecedentes de interés, que acude a Urgencias por somnolencia de 3 días de evolución. A su llegada a Urgencias se objetiva cifra de glucemia de 20 mg/dl por lo que se procede a iniciar perfusión de suero glucosado al 5% tras lo cual el paciente queda asintomático. A la exploración, presenta como único hallazgo disminución de ruidos respiratorios en campo pulmonar izquierdo. Se procede a realizar estudios analíticos y radiológicos con hallazgos de cifra de glucemia de 30 mg/dl en bioquímica; resto de estudios analíticos dentro de límites normales. En la radiografía de tórax se evidencia un velamiento del 90% del hemitórax izquierdo con desplazamiento de la línea media. Ante la sospecha de tumoración torácica se decide ingreso en Neumología.

Dentro del proceso diagnóstico se procede a realizar TC de tórax en donde se evidencia una masa pleural izquierda con diámetros 21,5 × 12 × 23 cm (fig. 1). Se realizó estudio analítico extendido incluyendo pruebas de función hepática, electrolitos, función tiroidea y proteínas con resultados dentro de límites normales. Sin embargo, el paciente presenta un llamativo mal control glucémico a pesar de dieta con alto contenido de hidratos de carbono de absorción lenta y refuerzos de glucosa intermitentes; por dicho motivo y de acuerdo con endocrinología, se decide iniciar tratamiento con corticoides a dosis de 1 mg/kg/día, mejorando los niveles, aunque persistiendo episodios de hipoglucemia graves que impiden dar de alta hospitalaria al paciente. Se procede a realizar una biopsia guiada por TC por parte del servicio de Radiología con resultado anatomopatológico compatible con tumor fibroso pleural con marcadores de inmunohistoquímica BCL2 y CD34 positivos y un índice de proliferación (Ki-67) del 3-7%. Ante la sospecha de un síndrome paraneoplásico secundario al tumor fibroso, se solicita una determinación del factor de crecimiento insulínico tipo II (IGF-II) con resultado de 621 ng/mL (valores de referencia 350-1.000 ng/mL).

Durante el ingreso, el paciente comienza con dolor en hemitórax izquierdo incapacitante que precisa de aumento progresivo

de dosis de analgesia. Dada la sintomatología, se contacta con el servicio de Cirugía Torácica y se realizan estudios preoperatorios (PET-TC), identificándose masa pleural con SUV máximo de 5,3 g/ml sin captación a otros niveles, gammagrafía pulmonar con recuento diferencial, objetivándose una perfusión del 82,3% que corresponde al pulmón derecho y del 17,7% restante correspondiendo al pulmón izquierdo. Al persistir hipoglucemias y dolor torácico, el paciente es derivado a Cirugía Torácica e intervenido con resección completa del tumor pleural mediante toracotomía, preservándose el parénquima pulmonar en su totalidad. Tras la intervención se realiza descenso de forma progresiva del tratamiento esteroideo, presentando normalización de las cifras de glucemia y también desaparición del dolor.

El síndrome de Doege-Potter, descrito por primera vez en 1930, es una entidad poco frecuente²⁻⁴. Se caracteriza por hipoglucemia constante, insulina sérica suprimida, péptido C, hormona del crecimiento e IGF-I bajo en suero, con niveles alterados de IGF-II. Un valor elevado de IGF-II orienta al diagnóstico, aunque existen casos con valores normales. En estos, la relación IGF-II/IGF-I suele ser mayor de 3:1 y el subtipo de IGF-II de peso molecular elevado suele estar aumentado⁴.

El síndrome se asocia con tumores fibrosos pleurales, otros tumores intratorácicos y con tumores fibrosos de otras localizaciones⁵. Suelen ser tumores de lento crecimiento con escasa sintomatología respiratoria inicial y en los que las hipoglucemias pueden ser el síntoma de inicio, por lo que se debería incidir sobre la valoración de realizar estudios de imagen torácicos ante hipoglucemias persistentes. Son más comunes entre la sexta y la octava década de la vida y en el sexo masculino en alguna serie. Además, predominan en el hemitórax derecho⁴⁻⁶.

Hasta la fecha no se ha encontrado ninguna vinculación a factores ambientales o tóxicos. Tienen un comportamiento benigno en la mayoría de los casos y raramente produce metástasis, aunque hasta un 12% presenta un comportamiento maligno⁷.

En los estudios de imagen el tumor fibroso aparece como una masa normalmente homogénea, bien delimitada y no invasiva. Para la obtención del diagnóstico histológico se recomienda la realización de biopsia con aguja gruesa o quirúrgica, ya que obtienen mayor cantidad de tejido.

Desde el punto de vista anatomopatológico, el tumor presenta una morfología fusocelular que alterna áreas de mayor densidad celular y áreas de escasa densidad celular; expresa CD34, que será útil para hacer el diagnóstico diferencial con otras neoplasias. Dicho marcador presenta una sensibilidad del 100% y una especificidad del 70,9%⁸. En ocasiones, las neoplasias con mayor agresividad expresarán el protooncogén BCL-2⁹.

La hipoglucemia, como síndrome paraneoplásico de este tumor, se asocia con mayor frecuencia a tumores derechos, mayores de 20 cm y con alto índice mitótico; existen estudios que han objetivado que la hipoglucemia está relacionada con un pronóstico más

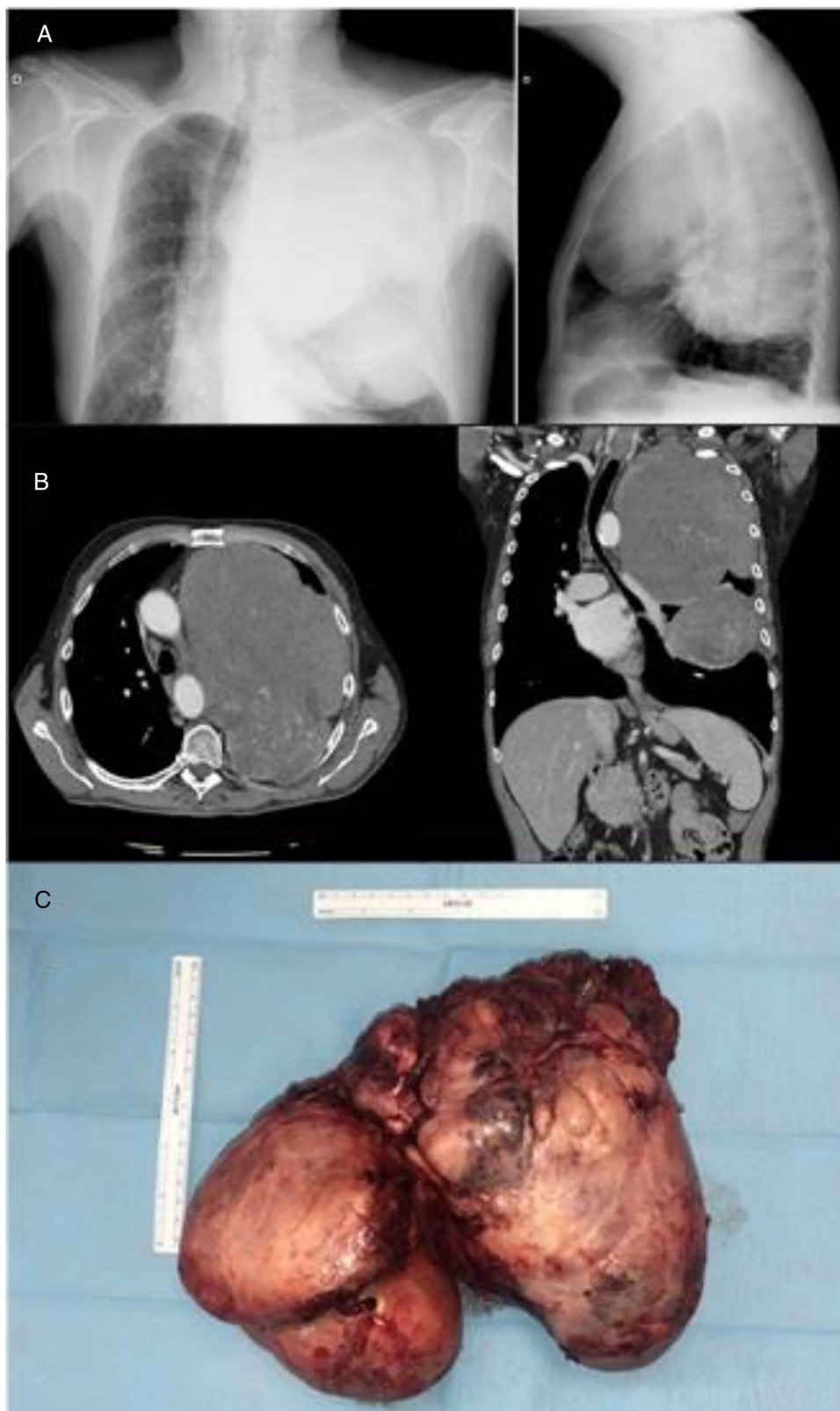


Figura 1. A) Radiografía de tórax posteroanterior y lateral. B) TC de tórax con contraste intravenoso, objetivándose gran tumoración pleural con desplazamiento de estructuras mediastínicas. C) Masa tumoral tras extracción quirúrgica.

precario, con el riesgo de recidiva o metástasis⁴. Los glucocorticoides han demostrado utilidad en el control de las glucemias por supresión de IGF-II de alto peso molecular¹⁰. En nuestro caso, en el momento de la extracción para la determinación del mismo, el

paciente estaba recibiendo tratamiento con glucocorticoides lo cual pudo alterar el resultado obtenido. El único tratamiento curativo es la resección quirúrgica¹¹, sin embargo, se estima una recurrencia de hasta un 15% según series descritas⁴⁻¹².

Bibliografía

- Wilson RW, Gallateau-Salle F, Moran CA. Desmoid tumors of the pleura: A clinicopathologic mimic of localized fibrous tumor. *Mod Pathol*. 1999;12:9-14. PMID: 9950156.
- Doegge KW. Fibro-sarcoma of the mediastinum. *Ann Surg*. 1930;92:955-60. PMID: 17866430.
- Hohenforst-Schmidt W, Grapatsas K, Dahm M, Zarogoulidis P, Leivaditis V, Kotoulas C, et al. Solitary fibrous tumor: A center's experience and an overview of the symptomatology, the diagnostic and therapeutic procedures of this rare tumor. *Respir Med Case Reports*. 2017;21:99-104. <http://dx.doi.org/10.1016/j.rmcr.2017.04.007>.
- Han G, Zhang Z, Shen X, Wang K, Zhao Y, He J, et al. Doegge-Potter syndrome. *Medicine* (Baltimore). 2017;96:e7417. <http://dx.doi.org/10.1097/md.00000000000007417>.
- Takizawa I, Saito T, Kitamura Y, Arai K, Kawaguchi M, Takahashi K, et al. Primary solitary fibrous tumor (SFT) in the retroperitoneum. *Urol Oncol Semin Orig Investig*. 2008;26:254-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.urolonc.2007.03.024>.
- Avramenko A, Lahjibi-Paulet H, Gibault L, Roussel A, Grand B, le Pimpec-Barthes F. Doegge-Potter syndrome: Hypoglycaemic coma in a 90-year old due to a solitary fibrous tumour. *Age Ageing*. 2017;46:527-9. <http://dx.doi.org/10.1093/ageing/afw221>.
- Brozzetti S, D'Andrea N, Limiti MR, Pisanelli MC, de Angelis R, Cavallaro A. Clinical behavior of solitary fibrous tumors of the pleura. An immunohistochemical study. *Anticancer Res*. 2000;20:4701-6. PMID: 11205204.
- Gold JS, Antonescu CR, Hajdu C, Ferrone CR, Hussain M, Lewis JJ, et al. Clinicopathologic correlates of solitary fibrous tumors. *Cancer*. 2002;94:1057-68. <http://dx.doi.org/10.1002/ncr.10328>.
- Kim DW, Na KJ, Yun JS, Song SY. Doegge-potter syndrome: A report of a histologically benign but clinically malignant case. *J Cardiothorac Surg*. 2017;12:64. <http://dx.doi.org/10.1186/s13019-017-0630-4>.
- Hosaka S, Katagiri H, Wasa J, Murata H, Takahashi M. Solitary fibrous tumor in the pelvis: Induced hypoglycemia associated with insulin-like growth factor II. *J Orthop Sci*. 2015;20:439-43. <http://dx.doi.org/10.1007/s00776-013-0462-6>.
- Kalebi AY, Hale MJ, Wong ML, Hoffman T, Murray J. Surgically cured hypoglycemia secondary to pleural solitary fibrous tumour: case report and update review on the Doegge-Potter syndrome. *J Cardiothorac Surg*. 2009;4:45. <http://dx.doi.org/10.1186/1749-8090-4-45>.
- Forster C, Roumy A, Gonzalez M. Solitary fibrous tumor of the pleura with Doegge-Potter syndrome: Second recurrence in a 93-year-old female. *SAGE Open Med Case Reports*. 2019;7. <http://dx.doi.org/10.1177/2050313X18823468>, 2050313X18823468.

Juan Diego Alvarez Mavarez^{a,*},
Manuel Angel Villanueva Montes^a,
Manuel Ricardo Rodríguez Seoane^a y Michelle Leung Shao^b

^a Servicio de Neumología, Hospital Universitario San Agustín, Avilés, Asturias, España

^b Servicio de Cirugía torácica, Hospital Universitario Central de Asturias, Oviedo, Asturias, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: juandiego06@hotmail.com
(J.D. Alvarez Mavarez).

<https://doi.org/10.1016/j.arbres.2019.04.005>
0300-2896/

© 2019 SEPAR. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

¿En qué momento deberíamos medir la autoeficacia para ayudar a dejar de fumar?



When Should We Measure Self-Efficacy as an Aid to Smoking Cessation?

Estimado Director:

Con el fin de mejorar las intervenciones para ayudar a dejar de fumar (DF) es necesario entender mejor las múltiples facetas que componen esta adicción y qué factores se esconden tras las recaídas^{1,2}. La autoeficacia (AE), entendida como la creencia de una persona en su capacidad de tener éxito en una situación particular, se ha asociado de manera fiable a la abstinencia y la recaída tabáquica, por lo tanto, es una diana de importancia en las intervenciones tabáquicas^{3,4}. El objetivo de nuestro estudio fue valorar la asociación entre AE, medida en la visita basal, y la abstinencia medida a los 12 meses.

Para ello realizamos un estudio observacional y multicéntrico de pacientes consecutivos que acudieron a consultas de tabaquismo para DF entre octubre de 2014 y octubre de 2015. Fueron recogidas variables demográficas y de estatus de fumador. La AE fue valorada a partir de 2 preguntas incluidas en los cuestionarios de motivación para DF de Richmond y de Khwiji-Watts⁵ (tabla 1). El análisis estadístico fue descriptivo y se llevó a cabo con el programa IBM SPSS 20.0 para Windows. Para valorar la asociación entre la AE y la variable resultado (éxito o fracaso en DF) se construyeron modelos de regresión logística con la variable resultado como variable dependiente, la variable AE como variable independiente y el resto de las variables como variables de control y ajuste. Se consideró como nivel de significación estadística un valor de $p < 0,05$.

El estudio incluyó a 275 sujetos, 130 varones (47,3%), con una edad media global de 51,2 años (DE 10,7). Del total, un 53,5% (147 sujetos) tuvo éxito en DF. La media de los diferentes test de motivación utilizados fue: Escala analógica visual 8 (1,9), cuestionario de Richmond 7,9 (1,5), test del Hospital Henry Mondor 13

(2,7) y el de Khwiji-Watts de 11,4 (2,5). La media del grado de dependencia global, medido por el test de Fagerström (FTCD), fue de 5,9 (2,2), sin diferencias de grado de dependencia entre los que dejaron de fumar (media 5,9 y DE 2,2) y los que fracasaron en el intento (media 5,9 y DE 2,4). No hemos encontrado diferencias significativas entre los que tuvieron éxito al DF frente a los que no lo consiguieron en ninguna de las variables analizadas: cuantitativas (edad, edad de inicio, consumo diario de cigarrillos, número de años fumados, consumo acumulado en años-paquete, número de intentos previos de abandono, cuestionarios de motivación y FTCD), y cualitativas (sexo, estado civil, nivel de estudios y situación laboral) salvo en el nivel de estudios, en el que aquellos con estudios secundarios tuvieron un 17,1% (IC 95%: 4,8-29,4%; $p = 0,004$) más de éxitos mientras que aquellos con estudios universitarios tuvieron un 12,4% (IC 95%: 0,7-24,0%; $p = 0,026$) más de fracasos. No hemos encontrado asociación estadísticamente significativa entre la AE y la variable resultado (tabla 1) en ninguno de los modelos de regresión logística posibles construidos, considerada la variable AE tanto cualitativa como cuantitativa, y controlando por sexo, edad, consumo diario de cigarrillos, número de años fumados, número de intentos previos de abandono, FTCD y nivel de estudios. Tampoco hemos encontrado, en el análisis multivariante, diferencias entre hombres y mujeres en la asociación entre AE y la variable resultado. La dependencia al cigarrillo medida por el FTCD no se asoció a la probabilidad de DF. Concluimos que ni la AE ni el grado de dependencia fueron predictoras de la probabilidad de éxito o fracaso en DF, solamente la variable nivel de estudios mostró asociación estadísticamente significativa con el resultado de DF.

El hallazgo más importante de nuestro trabajo ha sido que no hemos encontrado asociación entre la autoeficacia y la abstinencia tabáquica. Gwaltney et al.³ encontraron que la AE es un predictor pobre de abstinencia cuando esta es medida antes de realizar un intento de DF (como ocurre en nuestro trabajo) y que la asociación es algo más robusta al medirla tras el día «D». La AE varía en su capacidad para predecir abstinencia en función del tiempo^{3,6}: su asociación con la abstinencia es más probable cuando es medida