

Relato de Caso

Granuloma hialinizante de pulmão recidivante*

Recurrent pulmonary hyalinizing granuloma

Guilherme D'Andréa Saba Arruda, Paulo César Ribeiro de Carvalho,
Mara Patrícia Guilhermino de Andrade, Maurício Campos Cusmanich,
Gustavo Bandeira, Felipe Shiguelo Passos Tozaki

Resumo

Relatamos o caso de um paciente de 61 anos, masculino, internado com objetivo de exérese de massa pulmonar para estudo anatomopatológico. O paciente apresentara anteriormente um quadro de febre, tosse seca e dor torácica, associado à presença de massas pulmonares detectadas por radiografia de tórax, tendo sido submetido em duas ocasiões (1976 e 1981) a toracotomia para a investigação diagnóstica, sem diagnóstico anatomopatológico conclusivo. A TC de tórax revelou volumosas massas com áreas de calcificação em ambos os campos pulmonares. O material do estudo anatomopatológico foi compatível com granuloma hialinizante de pulmão. No pós-operatório, o paciente apresentou vários episódios de broncoespasmo que foram revertidos com medicação sintomática. Foi mantido com prednisona na dose de 40 mg/dia com boa evolução clínica até o envio deste relato.

Descritores: Glucocorticoides; Radiografia pulmonar de massa; Granuloma.

Abstract

We report the case of a 61-year-old male patient who underwent surgical excision of a lung mass for anatomopathological study. The patient had previously presented with fever, dry cough, and chest pain, together with lung masses detected by chest X-ray, and had undergone thoracotomy for diagnostic investigation on two occasions (1976 and 1981), although a conclusive diagnosis had not been made. A CT scan of the chest revealed large masses with areas of calcification in both lung fields. The anatomopathological study was consistent with pulmonary hyalinizing granuloma. In the postoperative period, the patient experienced several episodes of bronchospasm, which was reversible with the use of symptomatic medication. At this writing, the patient was receiving maintenance therapy with prednisone (40 mg/day) and had shown clinical improvement.

Keywords: Glucocorticoids; Mass chest X-ray; Granuloma.

Introdução

O granuloma hialinizante de pulmão é uma lesão benigna, rara e de etiologia e patogênese não bem definidas.⁽¹⁾ Descrito inicialmente em 1977, apresenta-se na forma multinodular, na maioria das vezes com localização bilateral e comportamento recidivante, sem predileção por gênero.⁽¹⁾ Clinicamente, pode ser assintomático (25% dos pacientes) ou manifestar-se com tosse seca, dor torácica, febre, dispnéia e hemoptise.

O acometimento extrapulmonar pode ocorrer em alguns casos.⁽²⁾ O diagnóstico é feito por estudo anatomopatológico, que revela depósitos de colágeno lamelar substituindo o parênquima pulmonar, associado a uma reação inflamatória crônica na periferia com formação de agregados linfoides.⁽²⁾ O tratamento não é bem estabelecido, mas há relatos de boa resposta aos corticosteroides.⁽²⁾

* Trabalho realizado no Hospital Municipal Dr. José de Carvalho Florence, Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina/ Universidade Federal de São Paulo – SPDM-UNIFESP – São José dos Campos (SP) Brasil.

Endereço para correspondência: Guilherme D'Andréa Saba Arruda. Rua Ilansa, 257, apto. 142, Vila Prudente, CEP 03127-070, São Paulo, SP, Brasil.

Tel 55 11 2063-0182. E-mail: guilhermearruda@uol.com.br

Apoio financeiro: Nenhum.

Recebido para publicação em 5/2/2010. Aprovado, após revisão, em 2/6/2010.

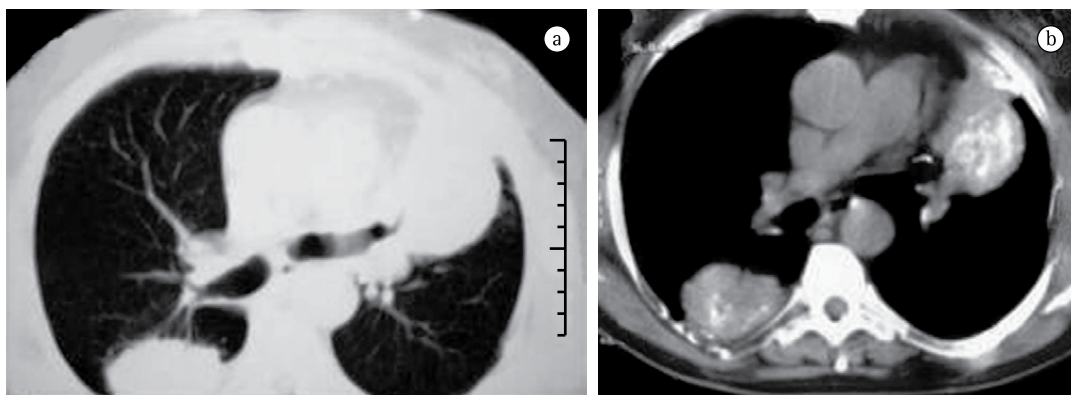


Figura 1 - TC de tórax, demonstrando volumosas massas pulmonares com extensas áreas de calcificações heterogêneas no nível dos lobos superiores.

Relato de caso

Apresentamos o caso de um paciente de 61 anos, masculino, pardo, internado em fevereiro de 2009 com o objetivo de exérese de uma massa pulmonar em lobo superior direito para estudo anatomopatológico, com suspeita inicial de metástases pulmonares.

O paciente apresentava história prévia de três internações em outro serviço para a investigação de massas pulmonares. A primeira internação foi em agosto de 1976, aos 28 anos, devido à febre, tosse seca e dor torácica, associados a uma massa pulmonar à esquerda revelada na radiografia de tórax. Foi submetido à toracotomia para exérese da massa, e o estudo anatomopatológico revelou a presença de processo inflamatório crônico inespecífico, com calcificações.

Em 1981, aos 33 anos, foi internado com os mesmos sintomas. Naquela ocasião, a radiografia de tórax revelou uma massa pulmonar, agora à direita. Foi realizada uma nova toracotomia para a retirada da massa, que apresentava resultado de estudo anatomopatológico semelhante ao da primeira internação. Um ano após a segunda intervenção, o paciente notou a formação de nódulos subcutâneos indolores, móveis, de consistência fibroelástica, localizados na região posterior do braço direito. A biópsia foi realizada em agosto de 1996, e o material da biópsia foi definido como tecido fibroso com ossificação distrófica, com algumas áreas sugerindo nódulo amiloide. Na ocasião, o paciente apresentava recorrência dos sintomas. A TC de tórax mostrava duas volumosas massas pulmonares em campo médio e superior do pulmão esquerdo (a maior medindo 9,0 cm no maior eixo, com contornos

lobulados) e um nódulo de 1,5 cm de diâmetro, em campo médio do pulmão direito, de aspecto homogêneo (Figura 1).

O paciente era portador de hipertensão arterial sistêmica, com bom controle medicamentoso. Negava tabagismo, etilismo ou exposição a fogão de lenha. Sua história ocupacional não revelava exposição prolongada a agentes tóxicos, sendo a maior durante 4 anos, quando fora exposto à poeira orgânica (armazenamento de cereais).

A broncoscopia com biópsia não forneceu nenhum aspecto relevante ao diagnóstico. Foi submetido à nova toracotomia com o intuito de realizar a exérese da massa. O exame macroscópico do lobo retirado revelou a presença de massa bem delimitada, de coloração branco-acinzentada, de consistência firme, com áreas pétreas e medindo 10,0 × 4,0 × 3,5 cm (Figura 2). À microscopia, foi observado parênquima pulmonar com extensa fibrose de aspecto hialinizado, áreas de calcificação e focos

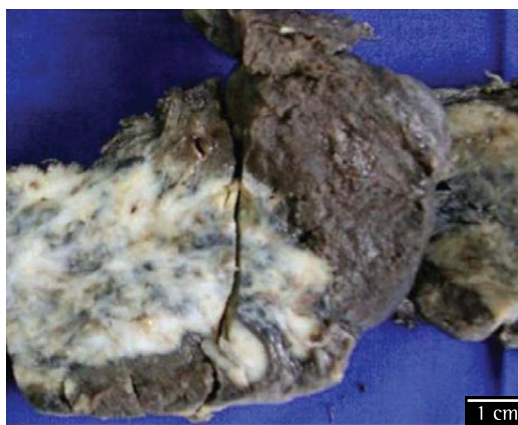


Figura 2 - Lobo pulmonar com massa branco-acinzentada, bem delimitada e de consistência firme.

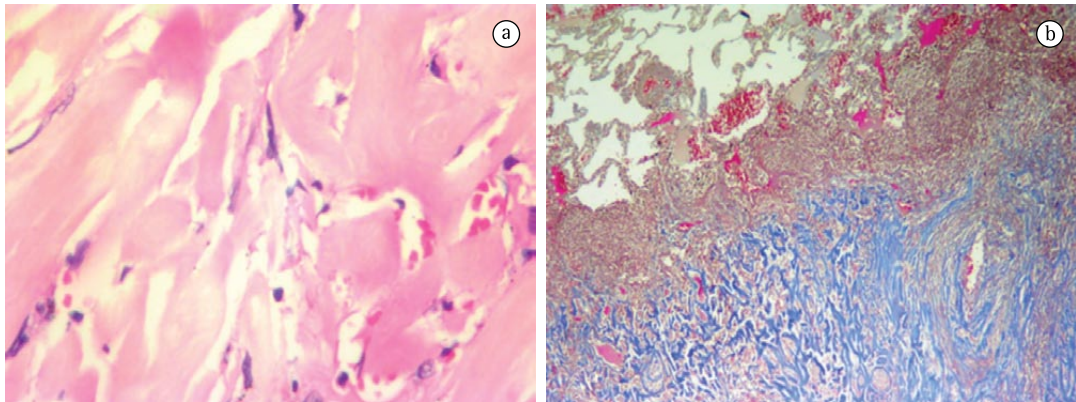


Figura 3 – Corte histológicos. Em a), área central da lesão paucicelular, constituída por colágeno semelhante a queiloide (H&E; aumento, 400×). Em b), parênquima pulmonar substituído por lamelas de colágeno espesso (tricroômico de Masson; aumento, 10×).

de metaplasia óssea (Figura 3). Na periferia da lesão, observou-se moderado infiltrado inflamatório linfoplasmocitário com formação de agregados linfoides, alguns granulomas do tipo corpo estranho e focos de bronquiolite obliterante/pneumonia em organização. As pesquisas para material birrefringente sob luz polarizada, fungos, BAAR e substância amiloide foram negativas. Os achados anatomopatológicos foram compatíveis com granuloma hialinizante. No pós-operatório, o paciente apresentou vários episódios de broncoespasmo que foram revertidos com medicação sintomática. Foi mantido com prednisona na dose de 40 mg/dia com boa evolução clínica até o presente momento.

Discussão

O granuloma hialinizante de pulmão foi relatado pela primeira vez em 1977.⁽¹⁾ Desde então, poucos casos foram relatados na literatura médica (menos de 100 casos publicados).⁽²⁾

É uma condição benigna que pode ter um curso recidivante.⁽³⁾ Na maioria das vezes, tem um acometimento multinodular. Sua importância reside no fato de constar da lista de diagnóstico diferencial de enfermidades muito mais frequentes, como tuberculose e histoplasmose. Outros possíveis diagnósticos diferenciais são o pseudotumor inflamatório e o tumor fibroso solitário, em virtude de características clínico-radiológicas semelhantes.⁽³⁻⁵⁾

A etiologia não é bem esclarecida, mas tem sido associada a uma reação anormal do organismo após exposição a antígenos (fungos ou bacilo da tuberculose). O granuloma hialinizante

já foi relacionado também a algumas doenças imunológicas e infecciosas, como, por exemplo, artrite reumatoide, mediastinite esclerosante, fibrose retroperitoneal, uveíte, tuberculose, histoplasmose e aspergilose.⁽⁶⁻⁸⁾

Os pacientes podem apresentar desde a forma assintomática, sendo a doença identificada por um achado radiológico, ou podem apresentar um quadro de tosse seca, dispneia, dor torácica inespecífica, fadiga e hemoptise.⁽⁹⁾

O diagnóstico é estabelecido com o exame anatomopatológico, que evidencia por microscopia a deposição de colágeno espesso (semelhante a queiloide) disposto em arranjos concêntricos ou irregularmente distribuídos, com hialinização central e substituindo o parênquima pulmonar. Na interface com o parênquima adjacente, há um aumento da celularidade e a presença de células inflamatórias linfoplasmocitárias, podendo haver a formação de agregados linfoides e granulomas do tipo corpo estranho.^(2,8)

Existem casos relatados de manifestações extrapulmonares, como o acometimento de rins, laringe e pele.^(9,10) No caso apresentado, o paciente apresentava um acometimento de pele, com a presença de um nódulo subcutâneo que foi investigado por meio de biópsia, com diagnóstico de osteoma cutis, mas aparentemente não associado ao quadro pulmonar.

Com relação à abordagem terapêutica, não existe nenhuma droga específica, mas há relatos de boa resposta após o uso de corticoterapia. A dose utilizada varia inicialmente de 40-60 mg/dia. Foi relatado o uso de quimioterapia nesses pacientes.⁽¹⁰⁾

Agradecimentos

Agradecemos às Doutoras Ester Nei Aparecida Martins Coletta e Clarice Guimarães Freitas.

Referências

1. Engleman P, Liebow AA, Gmelich J, Friedman PJ. Pulmonary hyalinizing granuloma. *Am Rev Respir Dis*. 1977;115(6):997-1008.
2. Na KJ, Song SY, Kim JH, Kim YC. Subpleural pulmonary hyalinizing granuloma presenting as a solitary pulmonary nodule. *J Thorac Oncol*. 2007;2(8):777-9.
3. Fidan A, Ocal Z, Caglayan B, Dogusoy I, Gumrukcu G. An unusual cause of pulmonary nodules: Pulmonary hyalinizing granuloma with recurrence. *Respir Med Extra*. 2006;2(4):112-5.
4. Chalaoui J, Grégoire P, Sylvestre J, Lefebvre R, Amyot R. Pulmonary hyalinizing granuloma: a cause of pulmonary nodules. *Radiology*. 1984;152(1):23-6.
5. Esme H, Ermis SS, Fidan F, Unlu M, Dilek FH. A case of pulmonary hyalinizing granuloma associated with posterior uveitis. *Tohoku J Exp Med*. 2004;204(1):93-7.
6. Shibata Y, Kobayashi T, Hattori Y, Matsui O, Gabata T, Tamori S, et al. High-resolution CT findings in pulmonary hyalinizing granuloma. *J Thorac Imaging*. 2007;22(4):374-7.
7. O'Reilly KM, Boscia JA, Kaplan KL, Sime PJ. A case of steroid responsive pulmonary hyalinising granuloma: complicated by deep venous thrombosis. *Eur Respir J*. 2004;23(6):954-6.
8. Preuss J, Woenckhaus C, Thierauf A, Strehler M, Madea B. Non-diagnosed pulmonary hyalinizing granuloma (PHG) as a cause of sudden unexpected death. *Forensic Sci Int*. 2008;179(2-3):e51-5.
9. Patel Y, Ishikawa S, MacDonnell KF. Pulmonary hyalinizing granuloma presenting as multiple cavitory calcified nodules. *Chest*. 1991;100(6):1720-1.
10. Shinohara T, Kaneko T, Miyazawa N, Nakatani Y, Nishiyama H, Shoji A, et al. Pulmonary hyalinizing granuloma with laryngeal and subcutaneous involvement: report of a case successfully treated with glucocorticoids. *Intern Med*. 2004;43(1):69-73.

Sobre os autores

Guilherme D'Andréa Saba Arruda

Médico Residente em Clínica Geral. Hospital Municipal Dr. José de Carvalho Florence, Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina/Universidade Federal de São Paulo – SPDM-UNIFESP – São José dos Campos (SP) Brasil.

Paulo César Ribeiro de Carvalho

Médico Pneumologista. Hospital Municipal Dr. José de Carvalho Florence, Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina/Universidade Federal de São Paulo – SPDM-UNIFESP – São José dos Campos (SP) Brasil.

Mara Patricia Guilhermino de Andrade

Médica Patologista. Laboratório Acta, Taubaté (SP) Brasil.

Maurício Campos Cusmanich

Médico Cirurgião Torácico. Hospital Municipal Dr. José de Carvalho Florence, Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina/Universidade Federal de São Paulo – SPDM-UNIFESP – São José dos Campos (SP) Brasil.

Gustavo Bandeira

Médico Cirurgião Torácico. Hospital Municipal Dr. José de Carvalho Florence, Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina/Universidade Federal de São Paulo – SPDM-UNIFESP – São José dos Campos (SP) Brasil.

Felipe Shigueo Passos Tozaki

Médico Residente em Cirurgia Geral. Hospital Municipal Dr. José de Carvalho Florence, Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina/Universidade Federal de São Paulo – SPDM-UNIFESP – São José dos Campos (SP) Brasil.