

TUMOR *PHYLLODES* BENIGNO EN EL HOMBRE

Reporte de un caso y revisión de la literatura

H. D. Vuoto, A. M. García, I. L. Frahm

RESUMEN

Los tumores *phyllodes* son entidades de origen fibroepitelial en la mama. La incidencia de su presentación es baja, entre 0,5 y 1,0% de todos los tumores mamaros y el 3% de las lesiones fibroepiteliales. Su presentación en hombres es de muy baja frecuencia y se reportaron sólo casos aislados.

Se presenta el caso de un paciente de sexo masculino de 53 años que consulta por un nódulo en la mama derecha. Se realizan mamografía y ecografía. Se efectúa resección con estudio intraoperatorio. El informe anatomopatológico fue de tumor *phyllodes* benigno de 6 cm. El caso no presenta antecedentes de importancia (ginecomastia) y su evolución hasta el presente es buena.

Palabras clave

Tumor *phyllodes* en el hombre. Tumor de mama en el hombre.

SUMMARY

The *phyllodes* tumors are entities of fibroepithelial origin in the breast. The incidence of their presentation is low, 0.5 to 1.0% of all of breast tumors and 3% of the fibroepithelial lesions. Its presentation in men is very low and only isolate cases were reported.

We present a case of a 53 year old male patient who consults for a nodule in the right breast. Mammography and ultrasound was done. A resection with frozen section was done. The anatomy pathology inform was, *phyllodes* tumor benign of about 6 cm. The case didn't present important antecedents (gynecomastia) and its evolution until present has been good.

Key words

Phyllodes tumors in men. Men breast tumors.

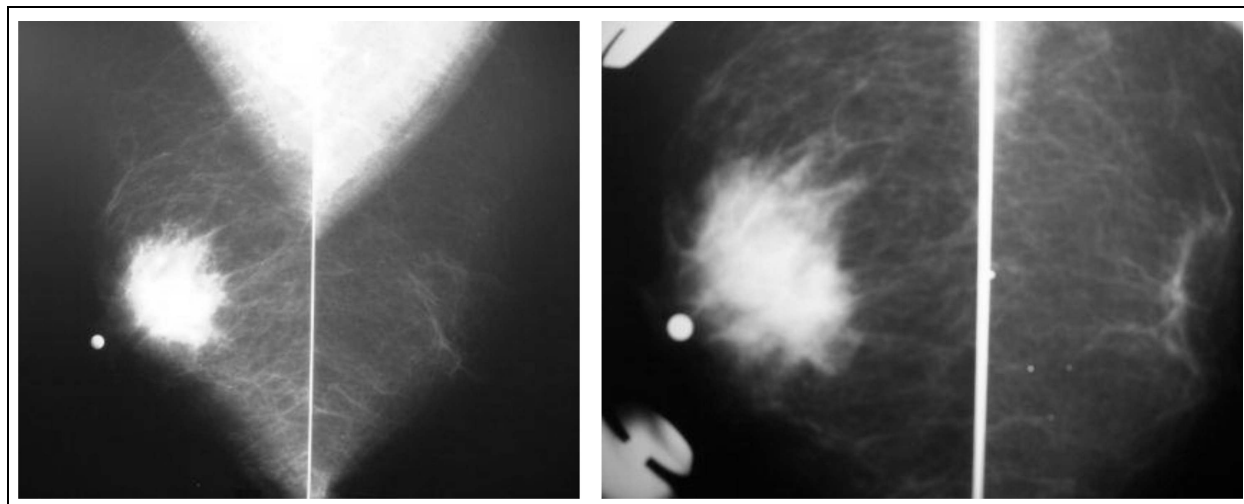
INTRODUCCIÓN

El tumor *phyllodes* fue descripto por primera vez en 1838 por Johannes Müller, denominándolo cistosarcoma *phyllodes*.¹ El término *phyllodes* deriva del griego *phyllos* (hoja) y *eidos*

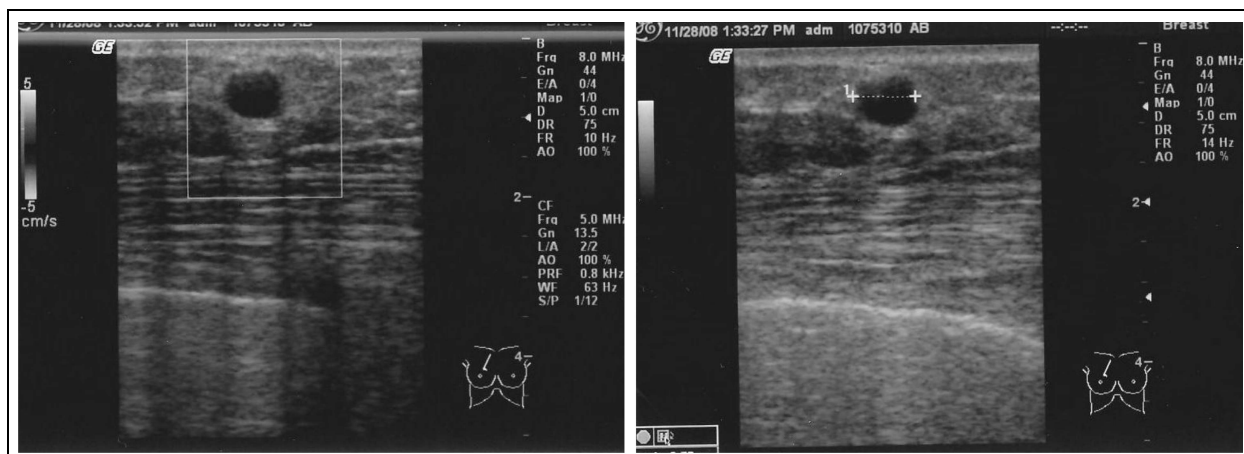
(forma). Es estructuralmente análogo al fibroadenoma, pero diferente histológicamente debido a las proyecciones en forma de hoja y el celulado del estroma.² Es una entidad rara de origen fibroepitelial y corresponde al 0,5% a 1,0% de los tumores de la mujer y hasta 3% de los tu-

Hospital Británico de Buenos Aires.

Correo electrónico para la Dra. Isabel L. Frahm: isabelf@fibertel.com.ar



Figuras 1 y 2. Imágenes mamográficas.



Figuras 3 y 4. Imágenes ecográficas.

mores fibroepiteliales. Clásicamente es descripto en mujeres entre 30 a 50 años, aunque hay casos publicados en ambos extremos de la vida.³ Es muy raro en hombres y sólo se han reportado casos aislados.

El objetivo del presente trabajo es reportar un caso de tumor *phyllodes* benigno en el hombre y realizar una revisión de la literatura.

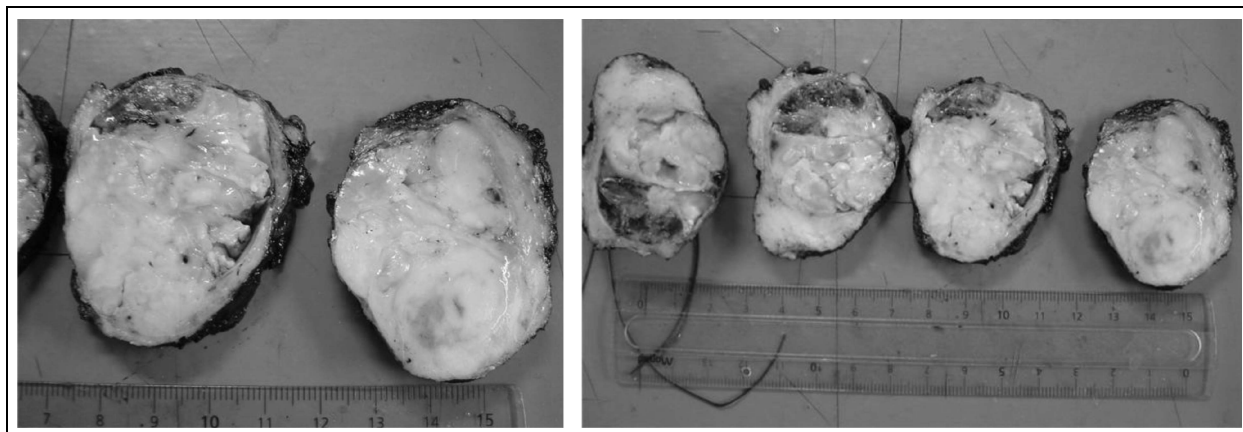
CASO CLÍNICO

Paciente de sexo masculino de 53 años, sin antecedentes patológicos de importancia. Con-

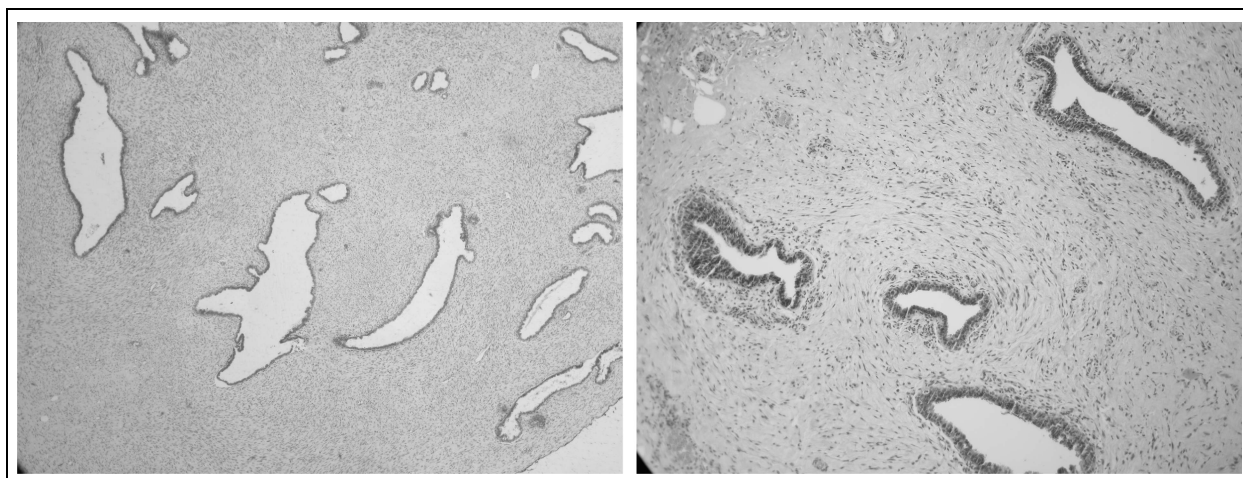
sulta por presentar un nódulo en mama derecha de 3 meses de evolución. Al examen físico se constata tumoración nodular de 3x3 cm dura, de límites poco precisos, que ocupa la totalidad de la región retroareolar derecha. Sin adenopatías axilares.

Se solicitan estudios complementarios. En la mamografía se observa en mama derecha región retroareolar, en concordancia con la palpación, densificación del tejido que se mantiene con las técnicas de compresión y magnificado de contornos poco precisos (Figuras 1 y 2).

En la ecografía se identifican en mama dere-



Figuras 5 y 6. Fotografías del aspecto macroscópico de la lesión.



Figuras 7 y 8. Fotografías del aspecto microscópico de la lesión.

cha hora 1 tres imágenes nodulares hipoeoicas de límites netos que miden: 0,8; 0,4 y 0,4 cm, respectivamente (Figuras 3 y 4).

Impresión diagnóstica conjunta: en mama derecha densificación del tejido que se corresponde ultrasónicamente con tres imágenes nodulares hipoeoicas. BI-RADS 4A.

Se decide realizar biopsia por congelación que informa: tumor fibroepitelial benigno, se difiere su diagnóstico. Se realiza escisión completa de la lesión.

Informe de anatomía patológica: se observa en la microscopia nódulo de 6 cm, parénquima blanquecino elástico con áreas quísticas que al-

terna con tejido amarillento de aspecto adiposo (Figuras 5 y 6). En la microscopia se visualiza una formación nodular constituida por proliferación ductal típica con hiperplasia y proliferación del estroma fusocelular denso con áreas hialinas. Se observan escasas mitosis (hasta una por campo de alto poder) y escasas áreas congestivas. No se identifican áreas de necrosis ni hemorragia (Figuras 7 y 8).

Diagnóstico anatomopatológico: tumor *phylloides* benigno de 6 cm de diámetro, con margen de resección más cercano a 1 cm.

El paciente presentó favorable evolución posquirúrgica y se encuentra en seguimiento sin

evidencia de recurrencia local a 10 meses del diagnóstico.

DISCUSIÓN

Inicialmente fue denominado cistosarcoma *phyllodes* por Müller en 1838 debido a su aspecto carnosos, con contenido quístico y hendiduras en su interior.¹ Pronto dicha nomenclatura llevó a confusión, ya que se lo asociaba a un tumor maligno. Recibió múltiples sinónimos, pero en 1981 la Organización Mundial de la Salud lo clasifica dentro de los tumores fibroepiteliales como tumor *phyllodes*, con sus variedades: benigna, *borderline* y maligna.⁴

El tumor *phyllodes* es una neoplasia fibroepitelial mamaria con un componente epitelial benigno y un componente mesenquimal benigno o maligno. Es poco frecuente y constituye del 0,5% a 1,0% de los tumores mamarios y hasta un 3% de los tumores fibroepiteliales.⁵

Se presenta más frecuentemente como un nódulo unilateral, bien definido, móvil e indoloro.

Su curso evolutivo generalmente es benigno. Se estima que entre un 14% y 50% de los tumores *phyllodes* presentan caracteres histológicos de malignidad,⁵ pudiendo recidivar localmente y producir diseminación metastásica a distancia por vía hemática en un 25-40%.⁶⁻⁸ Habitualmente se producen dentro de los primeros 5 años y los sitios más frecuentes son: pulmón, pleura y hueso.⁷

Tiene una tasa de recurrencia entre el 20% y 40%, más frecuente en tumores clasificados como malignos. De acuerdo a Chaney, et ál.⁶ el tumor benigno tiene una tasa de recurrencia local entre 5-15%, mientras que los considerados como malignos llegan al 30% de recurrencias. Sin embargo, Barrio, et ál. no encuentran diferencias en la tasa de recurrencias de tumores benignos y malignos.²

No obstante, el tumor *phyllodes* se reconoce por su comportamiento biológico impredecible.

Incluso los tumores histológicamente benignos pueden metastatizar,³ y no todos los tumores considerados malignos presentan un comportamiento agresivo.^{5,9}

Se acepta que el tratamiento inicial para todos los tipos histológicos es la escisión con amplio margen de tejido mamario sano entre 1 cm¹⁰ y 2 cm.^{3,11} Debiendo realizar de acuerdo al tamaño tumoral resección local con margen o mastectomía simple.

Debido a la diseminación hematogena que presenta el tumor, habitualmente no afecta la cadena ganglionar axilar, por lo que el estudio del ganglio centinela o el vaciamiento axilar no están indicados. Según Mangi, et ál. se confirma compromiso histológico a nivel axilar en menos del 5% de los casos en los que se realizó estudio de la axila por adenopatías clínicamente sospechosas.¹⁰

Norris y Taylor,⁹ consideran los siguientes factores histomorfológicos como determinantes de la capacidad de recurrir y metastatizar de estos tumores: márgenes del tumor (infiltrantes o por empuje), características del componente mesenquimal, número de mitosis, atipia celular y tamaño de la lesión.

Pietruszka et ál. en 1978,⁵ clasifican los tumores como benignos, *borderline* o malignos de acuerdo a tres parámetros ya utilizados por Norris y Taylor en 1967: número de mitosis, tipo de margen y atipia celular. Azzopardi en 1979,¹² propone la misma clasificación, agregando a los tres parámetros de Pietruszka⁵ el tipo de crecimiento del tejido mesenquimal, que en orden de frecuencia son: fibrosarcoma, liposarcoma, condrosarcoma, osteosarcoma, leiomiomasarcoma y rabdomiosarcoma.

El grupo del Memorial Sloan-Kettering Cancer Center,² caracteriza a los tumores que recidivarán con mayor frecuencia a los que presentan: márgenes cercanos o comprometidos, necrosis, historia previa de fibroadenomas, marcado celular del estroma y número de mitosis (no siendo significativa la presencia de los últimos dos fac-

Autor y año	Edad	Antecedentes	Tamaño (cm)	Tratamiento	Recurrencia	Seguimiento
Reingold 1970 ¹⁹	64	Linfoma más RT Ginecomastia	6,0	Resección	No	2 meses
Nielsen 1987 ²¹	71	Ginecomastia	4,0	Resección	No	*
Bartoli 1991 ²⁰	74	Cáncer próstata, ET Ginecomastia	1,0	Resección	No	11 años
Hilton 1991 ²²	15	Ginecomastia	7,0	Resección	No	*
Ansah-Boateng 1992 ¹³	20	Ginecomastia	2,5	*	No	*
Bapat 2002 ²³	44	Ginecomastia Adicto heroína	4,0	Resección	*	*
Konstantakos 2003 ¹⁴	58	HIV +	14,0	Resección	No	Muere a los 6 meses
Caso actual 2009	53	No presenta	6,0	Resección	No	10 meses
RT: Radioterapia. ET: Estrogenoterapia. *: No se cuenta con dicho dato. Modificado de Konstantakos, et al. 2003.						

Tabla I. Tumor *phyllodes* benigno en el hombre. Casos reportados en la literatura.

tores).

Los tumores fibroepiteliales (fibroadenoma o tumor *phyllodes*) son sumamente raros en el hombre debido a la ausencia de lóbulos en la mama normal de éste.¹³

Se realizó una revisión de la literatura pudiendo identificar 18 casos de tumores *phyllodes* en 17 pacientes de sexo masculino.¹³⁻¹⁸ De ellos, 7 casos se reportaron como tumores benignos y se describen junto al presente caso en la Tabla I. Seis de los casos publicados presentaron asociación con ginecomastia, un caso linfoma y radioterapia previa,¹⁸ otro a estrogenoterapia por tratamiento de carcinoma de próstata,¹⁹ y otro paciente HIV positivo.¹⁴ En el presente caso no se registraron antecedentes patológicos de importancia ni ginecomastia. Todos los casos, incluido el presente, fueron tratados con resección local del tumor.

Al igual que en el caso actual, no se registraron recidivas locales en ninguno de los 7 casos previos de tumores benignos en el hombre.

REFERENCIAS

1. Mueller J. Ueber clen feinern bau und die formen der krankhaften geschwuelste. Berlin, G Reimer, 1838; 54-60.
2. Barrio AV, Clark BD, Goldberg JI, Hoque LW, Bernik SF, Flynn LW, Susnik B, Giri D, Polo K, Patil S, Van Zee KJ. Clinicopathologic features and long-term outcomes of 293 phyllodes tumors of the breast. *Ann Surg Oncol* 2007; 14(10): 2961-2970.
3. Reinfuss M, Mitus J, Duda K, et al. The treatment and prognosis of patients with phyllodes tumor of the breast: an analysis of 170 cases. *Cancer* 1996; 77: 910-6.
4. World Health Organization. International histological classification of tumours. 2nd ed. No.2. Histological typing of breast tumors. Geneva, Switzerland WHO, 1981.
5. Pietruszka M, Barnes L. Cystosarcoma phyllodes: A clinicopathological analysis of 42 cases. *Cancer* 1978; 41: 1974-1983.
6. Chaney AW, Pollack A, McNeese MD, et al. Primary treatment of cystosarcoma phyllodes of the breast. *Cancer* 2000; 89: 1502-11.
7. Cohn-Cedermark G, Rutqvist LE, Rosendahl I, Silfversward C. Prognostic factors in cystosarcoma phyl-

- lodes. A clinicopathologic study of 77 patients. *Cancer* 1991; 68: 2017-22.
8. Hawkins RE, Schofield JB, Fisher C, Wiltshaw E, McKinna JA. The clinical and histologic criteria that predict metastases from cystosarcoma phyllodes. *Cancer* 1992; 69: 141-147.
 9. Norris HJ, Taylor HB. Relationship of histologic features to behavior of cystosarcoma phyllodes: an analysis of 94 cases. *Cancer* 1967; 20: 2090-2099.
 10. Mangi AA, Smith BL, Gadd MA, Tanabe KK, Ott MJ, Souba WW. Surgical management of phyllodes tumors. *Arch Surg* 1999; 134: 487-473.
 11. Rowell MD, Perry RR, Hsiu JG, Barranco SC. Phyllodes tumors. *Am J Surg* 1993; 165: 376-9.
 12. Azzopardi JG. Problems in breast pathology: Major problems in pathology. *Bennington Journal* 1979; 11: 355-359.
 13. Ansah-Boateng Y, Tavassoli FA. Fibroadenoma and cystosarcoma phyllodes of the male breast. *Mod Pathol* 1992; 5(2): 114-6 [Abstract].
 14. Konstantakos AK, Graham DJ. Cystosarcoma phyllodes tumors in men. *Am Surg* 2003; 69(9): 808-11.
 15. Kahán Z, Tószegi AM, Szarvas F, Gaizer G, Baradnay G, Ormos J. Recurrent phyllodes tumor in a man. *Pathol Res Pract* 1997; 193(9): 653-8 [Abstract].
 16. Pantoja E, Llobet RE, Lopez E. Gigantic cystosarcoma phyllodes in a man with gynecomastia. *Arch Surg* 1976; 111(5): 611 [Abstract].
 17. Keelan PA, Myers JL, Wold LE, Katzmman JA, Gibney DJ. Phyllodes tumor: clinicopathologic review of 60 patients and flow cytometric analysis in 30 patients. *Hum Pathol* 1992; 23(9): 1048-54 [Abstract].
 18. Campagnaro EL, Woodside KJ, Xiao SY, Daller JA, Evers BM. Cystosarcoma phyllodes (phyllodes tumor) of the male breast. *Surgery* 2003; 133(6): 689-91.
 19. Reingold IM, Ascher GS. Cystosarcoma phyllodes in a man with gynecomastia. *Am J Clin Pathol* 1970; 53(6): 852-6.
 20. Bartoli C, Zurrida SM, Clemente C. Phyllodes tumor in a male patient with bilateral gynecomastia induced by oestrogen therapy for prostatic carcinoma. *Eur J Surg Oncol* 1991; 17(2): 215-7 [Abstract].
 21. Nielsen VT, Andreassen C. Phyllodes tumour of the male breast. *Histopathology* 1987; 11(7): 761-2.
 22. Hilton DA, Jameson JS, Furness PN. A cellular fibroadenoma resembling a benign phyllodes tumour in a young male with gynecomastia. *Histopathology* 1991; 18(5): 476-7.
 23. Bapat K, Oropeza R, Sahoo S. Benign phyllodes tumor of the male breast. *Breast J* 2002; 8(2): 115-6.

DEBATE

Dr. Dávalos: Muy interesante la presentación de este caso que muy pocos, seguramente, vamos a verlo. Una observación, me llama la atención la discordancia que hay entre la imagen mamográfica, que parecía un cáncer y la imagen ecográfica que parecía un quiste. Una inquietud, teóricamente si esto es un fibroadenoma intracanalicular celular (es el otro nombre que tiene), y es patología del lobulillo, y este hombre en la otra mama por la mamografía no tenía ginecomastia; entonces, si realmente se sigue considerando esto como una patología lobulillar, porque si no, uno no se explica cómo un hombre que no esté en tratamiento hormonal o que no esté con ginecomastia tenga un tumor *phyllodes*. No sé si eso es explicable desde el punto de vista biológico e histológico. Por último, si en la mujer se exige un margen de 1 cm y este hombre fue tratado con una resección local, si ese margen de 1 cm anterior en la glándula mamaria que queda pegado al complejo areola-pepón no es un margen insuficiente y no se tendría que haber hecho una mastectomía simple.

Dra. Frahm: Con respecto a la discordancia entre la mamografía y la ecografía, yo creo que la ecografía tomó las lesiones quísticas que estaban en su mayor tensión y la imagen mamográfica por ahí un poco lo había opacado. Busqué y revisé la macroscopia en base a eso, y además, interpreté claramente las tres áreas quísticas que veía en la ecografía. En cuanto a la patología lobulillar, yo realmente no tengo explicación de esto. Entiendo que la etiopatogenia de los tumores *phyllodes* es una proliferación del estroma a expensas principalmente del estroma y que hace que proliferen la parte de los conductos. Pero sinceramente no sé si tienen alguna otra explicación; y no sé si alguno de ustedes tiene alguna otra explicación. Tampoco lo

encontré en la bibliografía, pero no quiere decir que no la haya, aunque yo no la haya encontrado. Lo del margen anterior, es la vieja discusión.

Dr. Vuoto: Lo del lobulillo sigue siendo un misterio donde aparece, pero hay muchísimas publicaciones que hablan de carcinomas lobulillares en el hombre, sin que hayamos visto un lobulillo. El margen de 1 cm a mí me dejó conforme, el paciente tampoco tenía ninguna intención que hiciéramos otra cosa. Cuando le dijimos que no era un cáncer, estaba tan contento que todavía está corriendo, hace un año de esto. En realidad tenía razón porque 1 cm es un margen más que suficiente para el carcinoma, mucho más para una patología benigna como ésta. Yo me he pasado diciendo en la vida que en el hombre había ginecomastia y cáncer, y tuve que aceptar que además hay otras patologías. Entonces, con este caso he aprendido muchísimo, y no porque sea uno de los siete casos que hay en el mundo, sino porque nunca se me ocurrió pensar que esto podría ser benigno, jamás.

Dr. Bernardello: Cuando usted hizo una revisión de los tumores *phyllodes*, ¿hizo la revisión en general, no de tumor *phyllodes* en el hombre propiamente dicho? Porque al hacer una revisión de los tumores *phyllodes* en el hombre hay muy pocos casos y entonces no se sacan números. Desde el punto de vista del tratamiento, usted puso la tumorectomía amplia o la mastectomía. Yo creo que tendría que haber agregado la adenomastectomía subcutánea, que puede usarse en más de un tumor *phyllodes* y que estoy seguro que lo han usado en la mujer más de una vez. Yo creo que hay muchos más casos en el mundo, el problema es que nosotros tenemos acceso a la publicación actual y nos hemos olvidado de las publicaciones más viejas. En Paraguay, Riveros tenía tumor *phyllodes* en el hombre; Bastista Di Salvaneto en San Pablo, tenía tumores *phyllodes*, están publicados en el libro del Dr. Uriburu, pero evidentemente son muy raros. Yo no tengo ninguna experiencia en

tumor *phyllodes* en el hombre.

Dra. Frahm: El último cuadro es de tumor *phyllodes* en el hombre. El resumen es de tumores *phyllodes* benignos en el hombre de casos publicados. En el libro del Dr. Uriburu hay 7 casos reportados de tumor *phyllodes* benigno en el hombre.

Dr. Gori: Yo quería hacer un comentario, si no han cambiado las cosas, porque las cosas van cambiando. El tumor *phyllodes* es un tumor mesenquimático, que tiene un componente epitelial. Cuando recae el *phyllodes* sólo recae el componente mesenquimático, esa es la prueba evidente de que tumoralmente es un tumor mesenquimático.

Dra. Frahm: Recae como *phyllodes*.

Dr. Gori: Recae pero sin componente epitelial.

Dra. Frahm: Si no tiene la parte epitelial no lo puede llamar *phyllodes*.

Dr. Gori: Bueno.

Dra. Frahm: La recidiva suele ser como un tumor *phyllodes*. Cuando son benignos recidivan con un tumor *phyllodes* benigno, en un gran porcentaje de los casos. A la segunda o tercera recidiva suele ser como un tumor *phyllodes* maligno.

Dr. Gori: El componente de malignidad o benignidad es el componente mesenquimático. Yo estoy hablando de otra cosa. Es una cosa interesante, sería cuestión de volverla a analizar.

Dra. Frahm: No estoy de acuerdo con la nomenclatura.

Dr. Gori: No es la nomenclatura, es la realidad, lo que se ve. ¿Ha visto muchas recaídas de *phyllodes*, realmente recaídas?

Dra. Frahm: Hoy vi una de un tumor *phyllodes* de una mujer de 47 años, a la cual en el año 2007 se le resecó un tumor *phyllodes* benigno.

Dr. Gori: ¿Tenía componente epitelial?

Dra. Frahm: De 6 cm.

Dr. Gori: Bueno.

Dra. Frahm: En el mismo área le recidivó

un tumor *phyllodes* de 3 cm. Saqué el preparado previo exactamente igual.

Dr. Gori: Está bien.

Dra Frahm: Con el área epitelial; porque si no la recidiva no la llamaría *phyllodes*. No lo puede llamar *phyllodes* si no tiene el componen-

te epitelial.

Dr. Gori: Por supuesto. Pero si viene de un *phyllodes* y aparece un componente mesenquimático igual al *phyllodes*, no vamos a pensar que es otra cosa. Pero lo vamos a buscar.

Dra. Frahm: Lo hemos buscado.