

Papiloma urotelial invertido vesical en adolescente

Inverted urothelial papilloma of the bladder in an adolescent

Jorge Robles Vega^a, Francisca Yankovic Barceló^{b,c}

^aDepartamento de Cirugía Infantil. Hospital Exequiel González Cortés. Santiago, Chile

^bServicio de Urología Pediátrica. Departamento de Cirugía Infantil. Hospital Exequiel González Cortés. Clínica Santa María. Santiago, Chile

^cFacultad de Medicina Universidad de Chile. Santiago, Chile

Recibido: 9 de diciembre de 2020; Aceptado: 3 de julio de 2021

¿Qué se sabe del tema que trata este estudio?

Las neoplasias vesicales son entidades infrecuentes en población pediátrica, de ellas el papiloma invertido representa < 1% de los casos, dada su baja incidencia y el reporte de casos con características citológicas aberrantes, el enfrentamiento clínico es controversial.

¿Qué aporta este estudio a lo ya conocido?

Respalda tanto la naturaleza benigna del papiloma invertido como la factibilidad de realizar un seguimiento no invasivo con ecografía seriada.

Resumen

El papiloma urotelial invertido es una neoplasia vesical inusual en la población pediátrica. Debido a su baja incidencia y al reporte de componentes atípicos, no existe consenso respecto a su manejo. **Objetivo:** reportar una adolescente con diagnóstico de papiloma invertido, y revisar la aproximación diagnóstica, terapéutica y plan de seguimiento de esta entidad. **Caso Clínico:** Adolescente de 13 años con hallazgo ecográfico incidental de lesión polipoidea vesical localizada en pared pósterio-inferior, durante estudio de dismenorrea. Se realizó resección cistoscópica y el informe histopatológico confirmó un papiloma urotelial invertido. La paciente evolucionó asintomática, sin evidencia de recurrencia tras 3 años de seguimiento ecográfico posterior a su resección. **Conclusiones:** El caso reportado soporta el comportamiento benigno del papiloma invertido, destacando la importancia del correcto diagnóstico histopatológico para la decisión de realizar un seguimiento no invasivo ecográfico.

Abstract

Inverted urothelial papilloma is a very rare neoplasm in the pediatric population. Because of the low incidence of cases and the reports of atypical components, the management and follow-up plan is not standardized. **Objective:** To report a case of inverted papilloma in a female adolescent and to review the diagnostic approach, management, and follow-up plan for this entity. **Clinical Case:** We reported

Palabras clave:

Tumor Vesical;
Papiloma Urotelial
Invertido;
Vejiga;
Urotelio

Keywords:

Bladder Tumor;
Inverted Urothelial
Papilloma;
Bladder;
Urothelium

Correspondencia:
Jorge Robles Vega
jorge.robles@ug.uchile.cl

a case of inverted papilloma as an incidental finding of a polypoid lesion on bladder ultrasound in a 13-year-old adolescent. Endoscopic resection was performed, and the histopathological analysis was compatible with inverted urothelial papilloma. The patient remains asymptomatic, with no evidence of recurrence after 3 years of ultrasound follow-up. **Conclusion:** This case supports the benign behavior of inverted papilloma, highlighting the importance of a correct histopathological diagnosis for the decision to carry out a non-invasive ultrasound follow-up.

Introducción

Las neoplasias vesicales son entidades poco frecuentes en la población pediátrica, siendo el más común el rhabdomyosarcoma, de origen mesenquimático, aunque otras lesiones malignas, benignas y reactivas han sido descritas¹. El papiloma invertido es una entidad extremadamente rara en niños, siendo inicialmente descrito por Paschkis en 1927 y denominado por su nombre actual por Potts y Hirst en 1963². Tiene una incidencia menor del 1% de las neoplasias del tracto urinario y tradicionalmente ha sido considerado como una neoplasia benigna o lesión hiperplásica reactiva^{2,3}.

En la literatura actual, no existen más de 5 reportes de casos en población pediátrica. Dada su muy baja incidencia, el enfrentamiento clínico no está completamente definido, siendo controversial. Nuestro objetivo es reportar una adolescente con diagnóstico de papiloma invertido, y revisar la aproximación diagnóstica, quirúrgica y plan de seguimiento de esta entidad.

Caso Clínico

Adolescente de 13 años, sin antecedentes mórbidos en quien durante un estudio ambulatorio por dismenorrea se identificó ecográficamente lesión polipoidea vesical de aproximadamente 5x5 mm. La paciente no tenía alteraciones al examen físico ni examen de orina. Se complementó con nueva ecografía vesical que demostró lesión ecogénica, polipoidea, endofítica, localizada en pared póstero-inferior vesical, de aproximadamente de 7 x 7 mm (figura 1). La cistoscopia confirmó la presencia de una masa polipoidea de superficie irregular, con pedículo vascular único en trigono vesical. Se realizó una resección endoscópica completa de la lesión con fulguración con láser Holmium:YAG (Fibra de 365 micrones, 0,8/8, pulsos/segundo) (figura 2), siendo dada de alta el mismo día del procedimiento, sin complicaciones. El informe anatomopatológico informó lesión de crecimiento endofítico y hallazgos compatibles con papiloma invertido (figura 3). La paciente evolucionó asintomática, sin evidencia de recurrencia en controles ecográficos tras 3 años de seguimiento posterior a su resección.

Discusión

Los tumores del tracto urinario inferior son raros en población pediátrica. Un análisis retrospectivo de masas vesicales entre 1988 - 2009 describe al rhabdomyosarcoma como la neoplasia vesical más frecuente, seguido de lesiones reactivas e inflamatorias, entre las que se mencionan la cistitis polipoide (4%), cistitis quística glandular (3%) y adenoma nefrogénico (2%). Más infrecuentes aún, las neoplasias de origen urotelial incluyen entidades como la Atipia/Displasia Urotelial (5%), Papiloma Urotelial (2%), Neoplasia Urotelial Papilar de bajo potencial maligno (PUNLMP) (2%), Carcinoma Papilar de Bajo y Alto Grado (1%) y el Papiloma Invertido (< 1%)^{1,4}.

El papiloma invertido ha sido reportado en su mayoría en adultos, con mayor incidencia en hombres que mujeres (5.8:1), y entre la sexta y séptima década de la vida^{3,5-7}. La gran mayoría se desarrollan a nivel del cuello y trigono vesical^{1,3,7}. Su presentación clínica puede ser sintomática, describiéndose hematuria, signos irritativos vesicales o dolor abdominal inespecífico, o de curso asintomático como un hallazgo incidental dentro del estudio de otra patología, como en el caso reportado^{3,8}.

Su etiología es desconocida, pero podría existir una asociación con condiciones inflamatorias, como infección urinaria recurrente, tabaquismo, obstrucción uretral y/o exposición a agentes carcinogénicos⁸. Se han descrito varios cambios cromosómicos y moleculares en estos pacientes, pero estos no han sido consistentes⁸. En lo que si hay consenso es en la poca frecuencia de pérdida de heterocigosidad, la ausencia de mutaciones en el gen p53, la ausencia de acortamiento de los telómeros y el patrón de mutaciones del Receptor 3 del Factor de Crecimiento Fibroblástico, lo que sugeriría que el papiloma invertido no posee las anomalías genéticas que predisponen al desarrollo de carcinoma urotelial y, por ende, estas entidades surgirían de mecanismos patogénicos distintos⁸.

Desde el punto de vista histopatológico, estos tumores exhiben un patrón de crecimiento invertido, compuesto de islas anastomóticas y trabéculas de células uroteliales histológicamente normales que se invaginan desde la superficie hasta la lámina propia sin in-

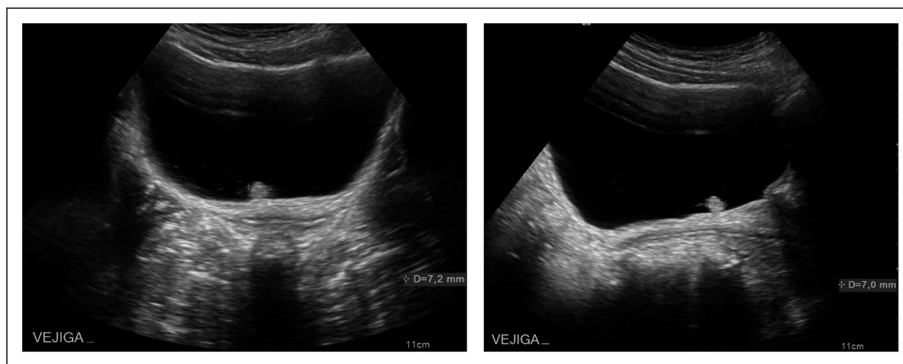


Figura 1. Ecografía vesical. Lesión ecogénica, polipoídea, endofítica, localizada en pared pótero-inferior vesical de 7 x 7mm.

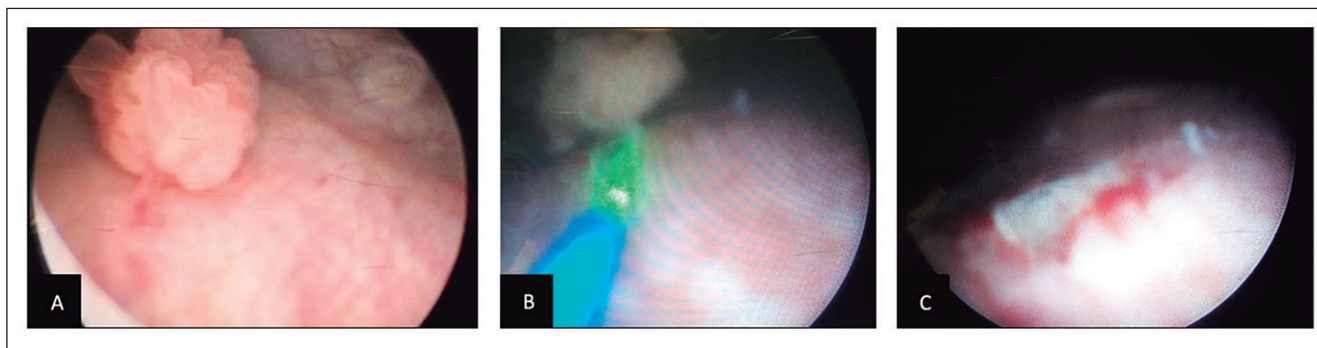


Figura 2. Cistoscopia y resección endoscópica. **(A)** Cistoscopia muestra masa polipoídea de superficie irregular, con pedículo vascular único ubicada en trigono vesical. **(B)** Resección endoscópica completa de la lesión con fulguración con láser Holmium:YAG. **(C)** Resultado post resección.

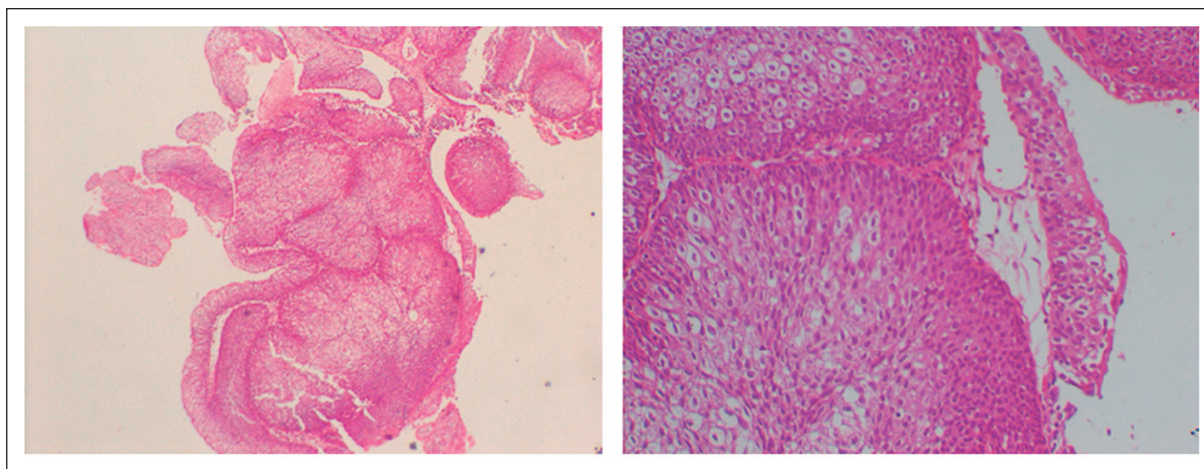


Figura 3. Estudio histopatológico: destaca crecimiento endofítico, compuesto por islas anastomóticas y trabéculas con línea urotelial normal, ausencia de atipias celulares.

filtrar la capa muscular propia^{6,8}, por lo que la resección transuretral completa es considerada el gold estándar del tratamiento^{2,3,8}. En el contexto de una neoplasia endofítica urotelial, los principales diagnósticos diferenciales corresponden a la Neoplasia Urotelial Papilar de bajo potencial maligno o el Carcinoma Urotelial de bajo o alto grado⁹. Uno de los problemas descritos

con este tipo de neoplasias es la dificultad de obtener un correcto diagnóstico histopatológico y, aunque los criterios morfológicos clásicos para papiloma invertido se han definido hace muchos años, existen reportes de papiloma invertido con características citológicas aberrantes^{2,3}, o incluso casos que se presentan con carcinoma urotelial sincrónico o metacrónico, que han

generado incertidumbre sobre su potencial maligno^{2,3}. Por esto algunos autores sugieren un cuidadoso seguimiento de estos pacientes post tratamiento, con cistoscopías flexibles cada 4 meses durante el primer año y luego cada 6 meses por los 3 años siguientes². Sin embargo, la mayoría de los casos donde existió desarrollo de malignidad subsecuente tenían historia de carcinoma urotelial previo o concurrente, que generó variabilidad de los resultados después de la resección³. De este modo, ante certeza histológica de esta entidad benigna, protocolos de seguimiento tan rigurosos como los del carcinoma urotelial parecerían ser innecesarios. Sung et al, en una serie de 75 adultos con diagnóstico histológico de papiloma invertido, reportó que ningún paciente presentó recurrencia en el periodo de seguimiento³. Complementariamente, Chen et al, en su serie de 51 casos de papiloma invertido, no reportó recurrencia o hallazgos de malignidad, con una media de seguimiento de 62 meses, concluyendo que el seguimiento cistoscópico no sería necesario en estos casos y remarcando la importancia de un correcto diagnóstico histopatológico que conduzca el plan de manejo y seguimiento⁹.

Conclusión

El caso presentado respalda tanto la naturaleza benigna del papiloma invertido como la factibilidad de

realizar un seguimiento no invasivo con ecografía seriada, no evidenciándose recurrencia en 36 meses de seguimiento posterior a la resección, de manera similar a casos reportados en adultos.

Responsabilidades Éticas

Protección de personas y animales: Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

Confidencialidad de los datos: Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado: Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Referencias

- Huppmann A, Pawel B. Polyps and Masses of the Pediatric Urinary Bladder: A 21-Year Pathology Review. *Pediatric and Developmental Pathology* 2011;14(6):438-44.
- Picozzi S, Casellato S, Bozzini G, et al. Inverted papilloma of the bladder: A review and an analysis of the recent literature of 365 patients. *Urologic Oncology: Seminars and Original Investigations* 2013;31(8):1584-90.
- Sung M, MacLennan G, López-Beltrán A, et al. Natural history of urothelial inverted papilloma. *Cancer* 2006;107(11):2622-7.
- Humphrey PA, Moch H, Cubilla AL, et al. The 2016 WHO Classification of Tumours of the Urinary System and Male Genital Organs-Part B: Prostate and Bladder Tumours. *European Urology* 2016;70(1):106-19.
- Cheng CW, Chan LW, Chan CK, et al. Is surveillance necessary for inverted papilloma in the urinary bladder and urethra? *ANZ Journal of Surgery* 2005;75(4):213-7.
- Williamson SR, Lopez-Beltrán A, MacLennan GT, et al. Unique clinicopathologic and molecular characteristics of urinary bladder tumors in children and young adults. *Urologic Oncology: Seminars and Original Investigations* 2013;31(4):414-26.
- Eiber M, van Oers JMM, Zwarthoff EC, et al. Low Frequency of Molecular Changes and Tumor Recurrence in Inverted Papillomas of the Urinary Tract. *The American Journal of Surgical Pathology* 2007;31(6):938-46.
- Limaïem F, Pandey J, Leslie SW. Inverted Urothelial Papilloma. *StatPearls* 2020. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK537218/>, última visita 23-06-21.
- Ho H, Chen YD, Tan PH, et al. Inverted papilloma of urinary bladder: is long-term cystoscopic surveillance needed? A single center's experience. *Urology* 2006; 68(2):333-6.