

Hiperplasia endotelial papilar intravascular (tumor de Masson) asociada con traumatismo, reactivada por COVID-19

Intravascular papillary endothelial hyperplasia (Masson's tumor) associated to trauma and reactivated by COVID-19.

Michelle Dithurbide-Hernández,¹ Gabriel Quintero-Bustos,² Braulio Martínez-Benítez³

Resumen

ANTECEDENTES: La hiperplasia endotelial papilar intravascular, también conocida como tumor de Masson, es un tipo de tumor vascular de muy baja incidencia. Se localiza con mayor frecuencia en las extremidades superiores y su existencia en los miembros inferiores es rara. Su formación secundaria a procesos traumáticos es poco frecuente.

CASO CLÍNICO: Paciente masculino de 27 años en quien ocurrió la relación entre un esguince de segundo grado del tobillo izquierdo y la aparición de una lesión compatible con hiperplasia endotelial papilar intravascular en el pie ipsilateral, así como la reactivación de síntomas durante un proceso agudo por COVID-19.

CONCLUSIONES: Debido a que el tumor de Masson puede compartir características con el angiosarcoma, es importante diferenciarlos porque el primero es una neoformación benigna.

PALABRAS CLAVE: Hiperplasia endotelial proliferativa intravascular, tumor de Masson, tumor vascular, COVID-19.

Abstract

BACKGROUND: Intravascular papillary endothelial hyperplasia, also known as Masson's tumor, is a type of vascular tumor with a very low incidence. It is more frequently located in the upper extremities and its presence in the lower limbs is rare. Its formation secondary to traumatic processes is uncommon.

CLINICAL CASE: A 27-year-old male in who the relationship between a second-degree sprain of the left ankle and the appearance of a lesion compatible with said pathology in the ipsilateral foot was presented, as well as the reactivation of symptoms during an acute process due to COVID-19.

CONCLUSIONS: Because Masson's tumor can share characteristics with angiosarcoma, it is important to differentiate them because the former is a benign neoformation.

KEYWORDS: Intravascular papillary endothelial hyperplasia; Masson's tumor; vascular tumor; COVID-19.

¹ Médico pasante de servicio social, Facultad de Medicina, Universidad Autónoma del Estado de Morelos, Morelos, México.

² Residente de segundo año.

³ Médico adscrito.

Departamento de Patología, Instituto Nacional de Ciencias Médicas y Nutrición Salvador Zubirán, Ciudad de México.

Recibido: febrero 2021

Aceptado: febrero 2021

Correspondencia

Michelle Dithurbide Hernández
mich.dh@hotmail.com

Este artículo debe citarse como: Dithurbide-Hernández M, Quintero-Bustos G, Martínez-Benítez B. Hiperplasia endotelial papilar intravascular (tumor de Masson) asociada con traumatismo, reactivada por COVID-19. Dermatol Rev Mex 2021; 65 (3): 410-415. <https://doi.org/10.24245/dermatol-revmex.v65i3.5783>

ANTECEDENTES

La hiperplasia endotelial papilar intravascular o tumor de Masson es un tumor vascular de muy baja incidencia que suele alojarse en tejido blando y la piel, aunque también se ha descrito su ocurrencia en otros sitios.^{1,2} Es una lesión benigna, de origen vascular debida a la proliferación de células endoteliales en la luz vascular junto con la formación de trombos. Es más común en mujeres y suele ser asintomático.^{3,4} Con mayor frecuencia se localiza en la cabeza, el cuello, el tórax y las extremidades superiores, pero su existencia en los miembros inferiores es rara.⁵

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 27 años, habitante de la Ciudad de México, cuya ocupación era médico residente de anatomía patológica. Refirió que en 2015 tuvo un accidente al descender de una pendiente a alta velocidad, que causó eversión del pie izquierdo y resultó en un esguince de segundo grado lateral del tobillo izquierdo con múltiples contusiones ipsilaterales a la región del esguince. Dos meses después del incidente, el paciente observó una lesión en la región plantar del pie izquierdo, de consistencia dura, superficial, de aproximadamente 1 cm, sin cambios de coloración, no dolorosa, por lo que se le realizó un estudio ultrasonográfico simple cuyo reporte describió una lesión con características de lipoma y se indicó tratamiento conservador; no se realizó ecografía Doppler. La lesión se mantuvo sin cambios por cerca de cinco años pese a la constante práctica de deportes.

En mayo de 2020, el paciente fue diagnosticado con COVID-19, por lo que fue enviado a aislamiento domiciliario; en este periodo el paciente manifestó dificultad para la deambulaci3n, así como dolor intenso y parcialmente incapacitante en la planta del pie izquierdo, en la misma regi3n de la lesi3n preexistente que se acompañ3 de

cambios súbitos en la coloraci3n de la misma zona. A la exploraci3n f3sica se encontr3 un tumor de 1 cm de diámetro en el borde retromedial de la planta del pie izquierdo, con superficie lisa, de tono violáceo, bordes regulares, móvil y doloroso a la palpaci3n. Una vez concluido el periodo de confinamiento, se realizó un estudio de imagen mediante ultrasonido Doppler, que report3 probable malformaci3n arteriovenosa, por lo que se realizó resonancia magnética contrastada del pie izquierdo, con hallazgos confirmatorios del diagnóstico (**Figura 1**). El paciente fue referido al servicio de Radiointervenci3n para esclerosar la lesi3n, sin tener éxito, por lo que fue referido al departamento de Cirugía vascular para tratamiento quirúrgico escisional. Se obtuvo una pieza quirúrgica de dimensiones de 1.4 x 1.0 x 1.0 cm (**Figura 2**). En el estudio histopatológico se observ3 proliferaci3n vascular, sin atipia, ubicada en la dermis reticular, caracterizada por múltiples trombos antiguos recanalizados que alternaban con estructuras papilares endovasculares (**Figura 3A**), así como dep3sitos extensos de

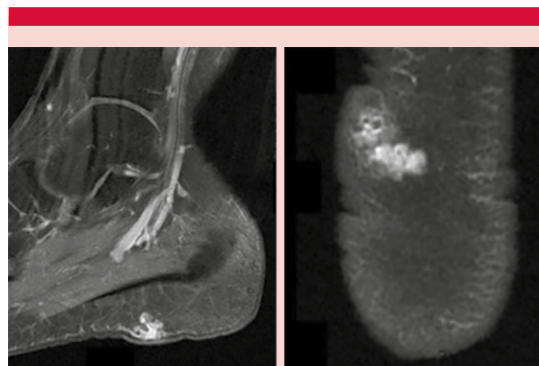


Figura 1. Resonancia magnética contrastada del pie izquierdo que reporta una lesi3n focal de tejido blando en el borde medial del retropié de localizaci3n subdérmica y en el tejido celular subcutáneo conformada por pequeños espacios de aspecto vascular confluentes reactivos al gadolinio endovenoso compatible con malformaci3n vascular de bajo flujo tipo hemangioma, con dimensiones de 12 x 14 x 22 mm en sus ejes mayores.



Figura 2. Pieza quirúrgica en la que se observa una lesión en la dermis de 1.4 x 1.0 x 1.0 cm, de bordes empujantes, multinodular, color rojo oscuro y consistencia blanda, se acompaña de múltiples fragmentos, de menor tamaño, y con las mismas características descritas.

hemosiderina y grupos de fibroblastos activados (**Figura 3B**), el índice de proliferación celular (Ki67) fue del 5%. El diagnóstico histopatológico fue hiperplasia endotelial papilar intravascular

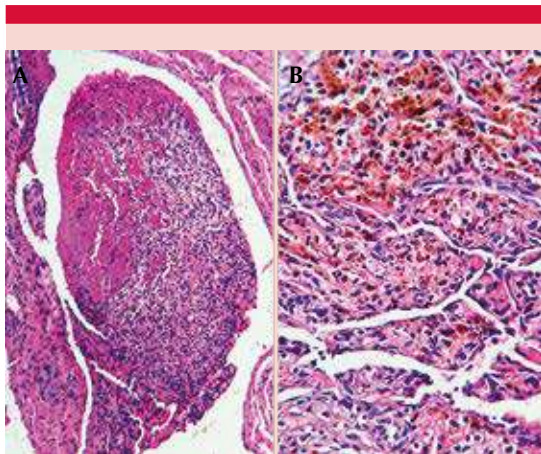


Figura 3. A. Fotomicrografía panorámica de vaso dilatado con trombo recanalizado y estructuras papilares intravasculares. **B.** Múltiples canales vasculares, depósitos de hemosiderina y grupos de fibroblastos activados en las regiones anexas al trombo de mayor tamaño (40X).

(tumor de Masson) asociada con malformación arteriovenosa (tipo 2).

DISCUSIÓN

El primer registro de la mención de este tipo de tumor lo realizó en 1923 el médico francés Pierre Masson, quien describió la trombosis asociada con proliferación endotelial de venas hemorroidales,⁶ pero en 1976 Clearkin y Enzinger lo caracterizaron como una lesión reactiva y no una neoplasia, por lo que le dieron el nombre de hiperplasia papilar endotelial intravascular, que es el nombre más aceptado en la actualidad.⁷ Representa aproximadamente al 2% de los tumores vasculares de la piel y tejido subcutáneo.⁸ Se considera una proliferación de estirpe vascular con comportamiento benigno, pero, en términos histológicos, puede simular un angiosarcoma bien diferenciado.⁹

Afecta comúnmente a adultos de 30 a 40 años, con mayor prevalencia en mujeres, por lo que se ha sugerido una posible relación con procesos hormonales. Su ubicación más común es en los dedos de los miembros superiores, seguidos por la cabeza y el cuello; se han identificado muy pocos casos en los miembros inferiores.^{10,11} En términos clínicos, se manifiesta como un nódulo bien definido, ovalado, rojo o violeta. Suelen ser de pequeño tamaño con medidas de 0.5 a 5 cm en su eje mayor. Por medio del ultrasonido Doppler pueden identificarse uno o más vasos sanguíneos asociados con la lesión, lo que lo diferencia de otras tumoraciones de tejido blando.³

Existen tres tipos de hiperplasia endotelial papilar intravascular reconocidos, el primero corresponde a un proceso primario puro que surge en dilataciones vasculares, principalmente de tipo venoso, el segundo se considera un proceso mixto que ocurre focalmente en alteraciones existentes, como várices, hemangiomas y malformaciones arteriovenosas y la tercera es una

forma extravascular rara que surge de hematomas. Todas las lesiones están estrechamente asociadas con trombos o material trombótico y la evolución puede durar de 15 días hasta 6 años.^{9,12}

La patogenia de la hiperplasia endotelial papilar intravascular es incierta, algunas investigaciones han descrito a la lesión como un proceso reactivo por lo que podría estar relacionado con un antecedente de traumatismo afectando al endotelio, con la subsecuente formación de un trombo. Sin embargo, sólo en el 4% de 314 casos en la bibliografía se reporta el antecedente de traumatismo.⁵

Normalmente los trombos tienden a organizarse, lo que se refiere al crecimiento dentro del mismo de células endoteliales, células musculares lisas y fibroblastos, lo que favorece la formación de canales capilares que pueden anastomosarse entre sí y constituir al trombo como un tumor de tejido conectivo con vascularización incorporado a la pared venosa en un proceso de inflamación endotelial. Con el tiempo y con la contracción de las células del mesénquima, puede permanecer el bulto fibroso marcando el sitio donde se encontraba originalmente el trombo.¹³

Levere y su grupo demostraron la existencia de concentraciones elevadas de factor de crecimiento de fibroblastos básico (FGF-b) en hiperplasia endotelial papilar intravascular comparado con trombos no clasificados como hiperplasia endotelial papilar intravascular y propusieron que la liberación de FGF-b por macrófagos atraídos al sitio de traumatismo estimula la proliferación de células del endotelio capilar que a su vez estimulan mayor liberación de este factor, generando un ciclo autocrino positivo de proliferación endotelial. Sin embargo, debido a la poca incidencia de la lesión relacionada con traumatismo y la naturaleza compleja del proceso de formación de trombosis, esta teoría

no describiría por completo el proceso fisiopatológico de la hiperplasia endotelial papilar intravascular.^{14,15}

Hay 11 casos reportados en la bibliografía de hiperplasia endotelial papilar intravascular con ubicación en el pie, de los cuales 2 mencionan el antecedente de traumatismo.^{16,17,18} En este caso, el paciente describe un accidente con un mecanismo de lesión de alta velocidad con formación de múltiples hematomas en el pie ipsilateral a la lesión y la subsecuente aparición de la lesión dos meses después de este antecedente, permaneciendo asintomático durante 5 años.

Algo importante de resaltar es el inicio abrupto e intenso de dolor, en la región plantar, durante el periodo agudo de infección por SARS-CoV-2, considerando que este virus puede causar dilatación de vasos sanguíneos a nivel cutáneo, trombosis severa e infiltrado inflamatorio neutrofílico a su alrededor,¹⁹ lo que podría explicar las molestias del paciente. Sin embargo, al momento de la biopsia el paciente ya no tenía síntomas de la enfermedad COVID-19.

Los hallazgos ultrasonográficos corresponden a una masa hipoecoica homogénea en comparación con la grasa subcutánea con vascularizaciones centrales y periféricas a la aplicación de imagen Doppler que demuestra un patrón vascular tipo 3 con uno o más vasos sanguíneos y ayuda a hacer el diagnóstico diferencial con otros tumores de tejidos blandos.²⁰ En la resonancia magnética, la forma mixta se describe como una tumoración bien definida con señal T2 hiperintensa con un foco similar a un nódulo de poca intensidad mientras que en T1, es ligeramente hiperintenso con la lesión tipo nódulo intenso y realce periférico o central.²¹

Aunque hay reportes de alivio espontáneo, un tercio de las lesiones se describen como dolorosas. Por ello, la escisión quirúrgica es de elección

para diagnóstico y tratamiento definitivo. La recurrencia es de aproximadamente el 8%, tiene mayor relación con la forma mixta y puede ser inherente a una escisión incompleta de la lesión. No existen reporte de comportamiento maligno hasta el momento.^{22,23,24}

CONCLUSIONES

La lesión comunicada corresponde a un caso de hiperplasia endotelial papilar intravascular tipo 2, una afección infrecuente con pocos reportes en la bibliografía. El conocimiento de esta enfermedad permite su sospecha ante otros diagnósticos diferenciales compatibles con una tumoración cutánea o subcutánea y, con ello, orientar la realización de estudios de gabinete. Debido a que puede compartir características con el angiosarcoma, es importante diferenciarlos porque el tumor de Masson es una neoformación benigna. Tras el diagnóstico y tratamiento de este tumor debe establecerse un plan de seguimiento a largo plazo por la posibilidad de recurrencia.

REFERENCIAS

- Díaz-Flores L, Gutiérrez R, Pino-García M, González-Gómez M, et al. Sinusoidal hemangioma and intravascular papillary endothelial hyperplasia: Interrelated processes that share a histogenetic piecemeal angiogenic mechanism. *Acta Histochem* 2018; 120 (3): 255-262. doi. 10.1016/j.acthis.2018.02.007.
- Oktar N, Ozer H, Demirtas E. Spinal intravascular papillary endothelial hyperplasia. Case report and review of the literature. *Br J Neurosurg* 2019; 0 (0): 1-3. doi. 10.1080/02688697.2019.1597832.
- Boukavalas S, Dillard R, Qiu S, Cole EL. Intravascular papillary endothelial hyperplasia (Masson's tumor). *Plast Reconstr Surg Glob Open* 2017; 5 (1): e1122. doi. 10.1097/gox.0000000000001122.
- Craig KA, Escobar E, Inwards CY, Kransdorf MJ. Imaging characteristics of intravascular papillary endothelial hyperplasia. *Skeletal Radiol* 2016; 45 (11): 1467-1472. doi. 10.1007/s00256-016-2445-0.
- Han Y, Yun S, Choi IH. Intravascular papillary endothelial hyperplasia occurring in the foot: A case report and review of literature. *Med (United States)* 2019; 98 (28): 2018-2020. doi. 10.1097/MD.00000000000016391.
- Steffen C. Dermatopathology in historical perspective: The man behind the eponym: Horatio George Adamson and Adamson's Fringe. *Am J Dermatopathol* 2001; 23 (5): 485-488. doi. 10.1097/00000372-200110000-00017.
- Clearkin FME. Intravascular papillary endothelial hyperplasia. *Arch Pathol Lab Med* 1976; 100 (8): 441-444.
- Reed CN, Cooper PH, Swerlick RA. Intravascular papillary endothelial hyperplasia: Multiple lesions simulating Kaposi's sarcoma. *J Am Acad Dermatol* 1984; 10 (1): 110-113. doi. 10.1016/S0190-9622(84)80053-5.
- Cardona-Hernández MA, Fierro-Arias L, González-González MC. Hiperplasia endotelial papilar intravascular (tumor de Masson). *Dermatol Rev Mex* 2017; 61 (5): 398-403.
- Mullicken JB, Glowackie J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg* 1982; 69 (3): 412-420.
- Kuo T-T, Sayers CP. Masson's "vegetant intravascular hemangioendothelioma": a lesion often mistaken for angiosarcoma. *Cancer* 1976; 38: 1227-1236.
- Hutcheson EL, Picarella EA, Blevins PK. Masson's tumor of the hand: A case report and brief literature review. *Ann Plast Surg* 2012; 69 (3): 338-339. doi. 10.1097/SAP.0b013e31822afa63.
- Akdur NC, Donmez M, Gozel S, Ustun H, et al. Intravascular papillary endothelial hyperplasia: Histomorphological and immunohistochemical features. *Diagn Pathol* 2013; 8 (1): 1-6. doi. 10.1186/1746-1596-8-167.
- Levere SM, Barsky SH, Meals RA. Intravascular papillary endothelial hyperplasia: A neoplastic "actor" representing an exaggerated attempt at recanalization mediated by basic fibroblast growth factor. *J Hand Surg Am* 1994; 19 (4): 559-564. doi. 10.1016/0363-5023(94)90256-9.
- Pins MR, Rosenthal DI, Springfield DS. Florid extravascular papillary endothelial hyperplasia (Masson's pseudoangiosarcoma) presenting as a soft-tissue sarcoma. *Arch Pathol Lab Med* 1993; 117 (3): 259-263.
- Kato H. Two cases of intravascular papillary endothelial hyperplasia developing on the sole. *J Dermatol* 1996; 23: 665-667. doi. 10.1111/j.1346-8138.1996.tb02674.x.
- Espinosa A, González J, García-Navas F. Intravascular papillary endothelial hyperplasia at foot level: A case report and literature review. *J Foot Ankle Surg* 2017; 56 (1): 72-74. doi. 10.1053/j.jfas.2016.09.016.
- Takashi A, Higuchi W A TM. Three cases of intravascular papillary endothelial hyperplasia. *Jpn J Dermatol* 1986; 96: 865.
- Llamas-Velasco M, Muñoz-Hernández P, Lázaro-González J, Reolid-Pérez A, et al. Thrombotic occlusive vasculopathy in a skin biopsy from a livedoid lesion of a patient with COVID-19. *Br J Dermatol* 2020; 183 (3): 591-593. doi. 10.1111/bjd.19222.
- Kim OH, Kim YM, Choo HJ, Lee SJ, et al. Subcutaneous intravascular papillary endothelial hyperplasia: ultrasound

- features and pathological correlation. *Skeletal Radiol* 2016; 45 (2): 227-233. doi. 10.1007/s00256-015-2281-7.
21. Paunipagar B, Rasalkar D, Ng A, Griffith J, et al. Intravascular papillary endothelial hyperplasia: report of two cases. *Acta Radiol* 2011; 52: 499-502. doi. 10.1258/ar.2011.100482.
 22. Fink BR, Temple HT, Mizel MS. Intravascular papillary endothelial hyperplasia: A pseudotumor presenting on the plantar foot. *Foot Ankle Int* 2003; 24 (11): 871-874. doi. 10.1177/107110070302401113.
 23. Hashimoto H, Daimaru Y, Enjoji M. Intravascular papillary endothelial hyperplasia. *Am J Dermatopathol* 1983; 5 (6): 539-546. doi. 10.1097/0000372-198312000-00004.
 24. Lee SJ, Choo HJ, Park JS, Park YM, et al. Imaging findings of intravascular papillary endothelial hyperplasia presenting in extremities: Correlation with pathological findings. *Skeletal Radiol* 2010; 39 (8): 783-789. doi. 10.1007/s00256-010-0888-2.

