



## Reporte de Caso

# Linfoma gástrico primario de células T, no asociado a HTLV-1, con metástasis cutánea y neumoperitoneo

## Non-HTLV-1-associated primary gastric T-cell lymphoma with cutaneous metastasis and pneumoperitoneum

DOI

<https://doi.org/10.35434/rcmhnaaa.2022.151.1055>

Edinson Dante Meregildo-Rodríguez<sup>1,2,a</sup>; Vanessa April Ramos-Saavedra<sup>3,b</sup>;  
Walter Giovanni Espino-Saavedra<sup>4,5,c</sup>; Marcela Cecilia Delgado-Sánchez<sup>5,d</sup>; Halbert Christian Sánchez-Carrillo<sup>6,e</sup>

### RESUMEN

**Introducción:** Los linfomas gástricos primarios representan menos del 5% de los linfomas no Hodgkin (LNH). La gran mayoría de linfomas gástricos primarios son linfomas de células B de alto grado. Los linfomas gástricos primarios de células T son muy raros y usualmente se asocian a infección por HTLV-1 en regiones endémicas.

**Material y método.** Describimos el caso de una paciente mujer de mediana edad que se presentó con neumoperitoneo debido a ulcera gástrica perforada, síndrome consuntivo y lesiones cutáneas y orales.

**Resultados.** La histopatología e inmunohistoquímica confirmaron linfoma gástrico primario de células T con compromiso cutáneo. La serología para HTLV-1, virus del Epstein-Barr y VIH fueron negativas. **Conclusión.** La finalidad de este reporte es dar a conocer esta forma de presentación sumamente rara de linfoma gástrico primario.

**Palabras Clave:** Linfoma no Hodgkin; linfoma de células T; infecciones por HTLV-1; tracto gastrointestinal; neumoperitoneo; Reporte de caso (Fuente: DeCS-BIREME).

### ABSTRACT

**Background:** Primary gastric lymphomas account for less than 5% of non-Hodgkin lymphomas (NHL). The vast majority of primary gastric lymphomas are high-grade B-cell lymphomas. Primary gastric T-cell lymphomas are very rare and are usually associated with HTLV-1 infection in endemic regions. **Material and methods.** We describe the case of a middle-aged female patient who presented with pneumoperitoneum due to a perforated gastric ulcer, wasting syndrome, and skin and oral lesions. **Results.** Histopathology and immunohistochemistry confirmed primary gastric T-cell lymphoma with skin involvement. The serology for HTLV-1, Epstein-Barr virus and HIV were negative. **Conclusion.** The aim of this report is to present this extremely rare presentation of primary gastric lymphoma.

**Keywords:** Lymphoma, non-Hodgkin; lymphoma, T-Cell; HTLV-1 infections; gastrointestinal tract; pneumoperitoneum; Case report. (Source: DeCS-BIREME).

### FILIACIÓN

1. Universidad César Vallejo, Escuela de Medicina. Trujillo, Perú.
2. Servicio de Medicina Interna, Hospital Regional Lambayeque. Chiclayo, Perú.
3. Servicio de Gastroenterología, Hospital Regional Lambayeque. Chiclayo, Perú.
4. Universidad Señor de Sipán. Escuela de Medicina. Chiclayo, Perú.
5. Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Regional Lambayeque. Chiclayo, Perú.
6. Servicio de Emergencia, Hospital Regional Lambayeque, Chiclayo, Perú.
  - a. Médico Internista, Maestro en Medicina, Doctor en Investigación Clínica y Traslacional.
  - b. Médico Gastroenterólogo
  - c. Médico Patólogo, Maestro en Medicina.
  - d. Médico Patólogo
  - e. Médico Internista.

### ORCID

1. Edinson Dante Meregildo-Rodríguez / [0000-0003-1814-5593](https://orcid.org/0000-0003-1814-5593)
2. Vanessa April Ramos-Saavedra / [0000-0001-8757-9024](https://orcid.org/0000-0001-8757-9024)
3. Walter Giovanni Espino-Saavedra / [0000-0002-8896-0203](https://orcid.org/0000-0002-8896-0203)
4. Marcela Cecilia Delgado-Sánchez / [0000-0002-0321-0308](https://orcid.org/0000-0002-0321-0308)
5. Halbert Christian Sánchez-Carrillo / [0000-0001-8937-5455](https://orcid.org/0000-0001-8937-5455)

### CORRESPONDENCIA

Edinson Dante Meregildo-Rodríguez  
Residencial Puertas del Sol, Calle 09, Mz. Y, Lt. 11; Cód. Postal 14007; Chiclayo; Lambayeque; Perú.  
Teléfono: +51 944226126

### EMAIL

[dante\\_meregildo@hotmail.com](mailto:dante_meregildo@hotmail.com)

### CONFLICTOS DE INTERÉS

Los autores niegan conflictos de interés.

### FINANCIAMIENTO

Autofinanciamiento.

### CONTRIBUCIONES DE AUTORÍA

EDMR contribuyó con la concepción, redacción, revisión y aprobación final del manuscrito. VARS redactó el caso clínico. WGES y MCDS se encargaron de proporcionar las microfotografías y su descripción anatomopatológica. HCSC participó en proporcionar el resto de imágenes clínicas, consentimiento informado y autorización del Comité de Ética. Todos participaron en la revisión y aprobación final del manuscrito.

### REVISIÓN DE PARES

Recibido: 27/08/2021  
Aceptado: 18/01/2022

### COMO CITAR

Meregildo-Rodríguez ED, Ramos-Saavedra VA, Espino-Saavedra WG, Delgado-Sánchez MC, Sánchez-Carrillo HC. Linfoma gástrico primario de células T, no asociado a HTLV-1, con metástasis cutánea y neumoperitoneo. Rev. Cuerpo Med. HNAAA [Internet]. 20 de junio de 2022 [citado 20 de junio de 2022]; 15 (1): 126-9. DOI: <https://doi.org/10.35434/rcmhnaaa.2022.151.1055>



Esta obra está bajo una Licencia Creative Commons Atribución 4.0 Internacional.  
Versión Impresa: ISSN: 2225-5109  
Versión Electrónica: ISSN: 2227-4731  
Cross Ref. DOI: 10.35434/rcmhnaaa  
OJS: <https://cmhnaaa.org.pe/ojs>

## INTRODUCCIÓN

La infiltración gastrointestinal se presenta en 50-60% de pacientes con linfomas no Hodgkin (LNH) al momento de la autopsia. Sin embargo, los linfomas primarios del tracto digestivo representan solo el 1-4% de los tumores que afectan estas localizaciones<sup>(1)</sup>. La gran mayoría de los linfomas gastrointestinales primarios son de origen de células B<sup>(1)</sup>. Los linfomas de células T (LCT) del tracto gastrointestinal son raros; mientras que, los LCT gástricos primarios son aún más raros y representan solo el 2.5-10% de los linfomas gástricos primarios<sup>(1,2)</sup>. La mayoría de casos reportados de LCT gástricos primarios se asocian a infección por HTLV-1 y/o virus del Epstein-Barr (VEB).

Reportamos el primer caso de LCT gástrico primario, no asociado a HTLV-1 ni VEB, complicado con metástasis cutánea y perforación gastrointestinal. No existen publicaciones previas respecto a algún LCT gástrico primario complicado con perforación y neumoperitoneo. Sin embargo, se ha descrito que la perforación antes de la terapia es característica de 2 tipos de linfoma gastrointestinal primario: el linfoma maligno con eosinofilia (LME) y el linfoma inmunoblástico<sup>(3)</sup>. El LME es una variante inusual de LCT que es más común en intestino delgado, mientras que el LCT inmunoblástico es un subtipo raro de LCT maduras periféricas<sup>(4,5)</sup>.

## REPORTE DE CASO

Mujer de 45 años residente en Ferreñafe. Sin antecedentes de relevancia. Inicia con lesiones dolorosas y friables en paladar y odinofagia. Un mes después, se agrega diarrea sin moco ni sangre, escaso volumen, asociado a pujo y tenesmo; alternados con periodos de estreñimiento. Un mes después del inicio de la diarrea, nota edema blando maleolar bilateral, y un mes después de esto, aparecen lesiones descamativas de 1 cm en espalda, que subsecuentemente aumentaron de tamaño y se extendieron a todo el cuerpo. Seis meses después del inicio de los síntomas, presenta dolor epigástrico intenso que posteriormente se generaliza a todo el abdomen y asocia a vómitos porráceos, acudiendo al Hospital Regional Lambayeque (HRL). Refería pérdida de 20 kilogramos de peso durante los últimos 6 meses.

Paciente en regular estado general, afebril, estable hemodinámicamente. Peso 40 kg, talla 1.51 m. En boca lesiones blanquecinas en placa de 2 x 3 cm, sobre base eritematosa. Piel seca y pálida; lesiones en placas descamativas marrones de 1 x 2 cm, con halo periférico eritematoso en dorso, abdomen y extremidades; entre éstas, otras pequeñas lesiones papulares eritematosas (Figura 1). Edema blando maleolar bilateral. Aparato respiratorio, cardiovascular, genitourinario, neurológico: sin alteraciones. Abdomen: plano, dolor difuso a la palpación.

Ante una paciente consuntiva, con dolor abdominal y cambios en la consistencia de las deposiciones, se planteó el diagnóstico de neoplasia y/o tuberculosis gastrointestinal. La analítica mostró anemia microcítica hipocrómica

(hemoglobina 8 g/dl), trombocitosis (760 000 /mm<sup>3</sup>), linfopenia (792 /mm<sup>3</sup>) e hipoalbuminemia (1.97 mg/dl). La lamina periférica evidenció: trombocitosis; neutrofilia relativa (89%), granulaciones tóxicas sin blastos ni células inmaduras ni eosinofilia. Las serologías para VIH, HTLV-1, VEB, VDRL/RPR, hepatitis B y C fueron negativas. La deshidrogenasa láctica, calcio y ácido úrico sérico, TSH y T4-libre fueron normales. La ecografía abdominal mostró líquido libre (1000 ml) en cavidad abdominal. La radiografía de tórax (Figura 2) y tomografía toraco-abdominal-pélvica mostraron signos de neumoperitoneo. No se evidenció compromiso tumoral pulmonar ni ganglionar. La endoscopia alta mostró candidiasis esofágica, mucosa irregular y úlcera penetrada a nivel de unión antro-corporal (Figura 3).

Quince días después del ingreso se realizó laparotomía exploratoria, reportándose úlcera gástrica perforada de 4 cm y dos tumoraciones: una de 9 cm en tercio medio de cuerpo gástrico y otra de 4 x 5 cm en borde mesentérico de colon transverso; resto de estómago con múltiples úlceras, engrosamiento y edema de sus paredes. La histopatología de la biopsia por congelación de la úlcera fue positiva para “neoplasia maligna de estirpe epitelial”, procediéndose a gastrectomía subtotal Billroth II y colectomía transversa. La histopatología de la biopsia cutánea fue compatible con “metástasis cutánea de carcinoma pobremente diferenciado con células en anillo de sello de probable origen gastrointestinal e infección por *Sarcoptes scabiei*” (Figura 4).

En el postoperatorio, la paciente recibió nutrición parenteral. Cinco días después de la laparotomía, la histopatología de biopsia quirúrgica mostró: “neoplasia maligna de células redondas” en borde de úlcera gástrica perforada con varios grupos ganglionares gástricos comprometidos por neoplasia. Un mes después de la cirugía, la inmunohistoquímica confirmó LCT gástrico primario estadio clínico IV por compromiso dérmico (Figura 5). Los resultados de los marcadores fueron: CD20 (-), CD3 (+), CD4 (+), CD8 (+), CD56 (-), CD25 (+). Cinco días después, inició quimioterapia (ciclofosfamida 750 mg/m<sup>2</sup>, doxorubicina 50 mg/m<sup>2</sup>, vincristina 1.4 mg/m<sup>2</sup>, prednisona 50 mg/m<sup>2</sup>) siendo luego dada de alta para continuar quimioterapia ambulatoria. A mediados de diciembre del 2019 la paciente fallece.



**Figura 1.**

En lengua se observa pápulas y placas blanquecinas de tamaño variable, sobre base eritematosa, sin lesiones satélite. B: En el dorso de la paciente se aprecian placas marrones descamativas de 2 x 3 cm; entre éstas, se presentan otras lesiones papulares eritematosas de menor tamaño.

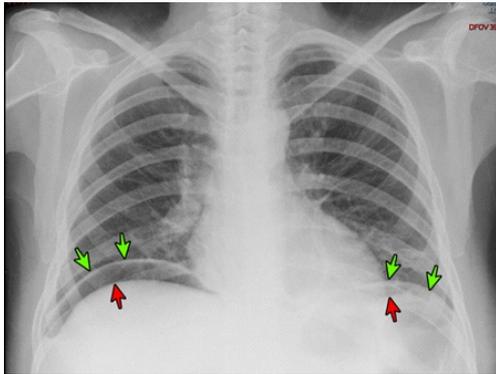


Figura 2.

Radiografía de tórax muestra imágenes radiolúcidas (flechas rojas) en forma de hoz debajo de hemidiafragmas (flechas verdes) sugerente de neumoperitoneo.



Figura 3.

Endoscopia alta muestra úlcera penetrada (delimitada por flechas verdes) a nivel de unión antro-corporal.

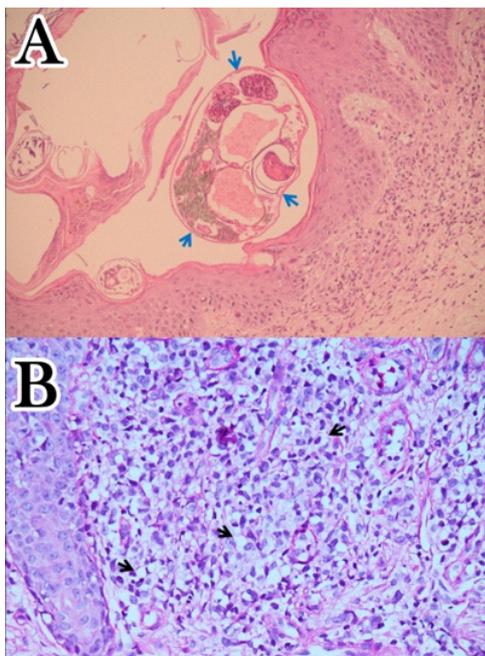


Figura 4.

Microfotografías a 40X, muestra: biopsia cutánea. A: En estrato corneo *Sarcoptes scabiei* (flechas azules). Tinción Hematoxilina & Eosina. B: Infiltración de células atípicas vacuoladas con aspecto de anillo de sello (flechas negras) en dermis superficial. Tinción PAS (*Periodic Acid-Schiff*).

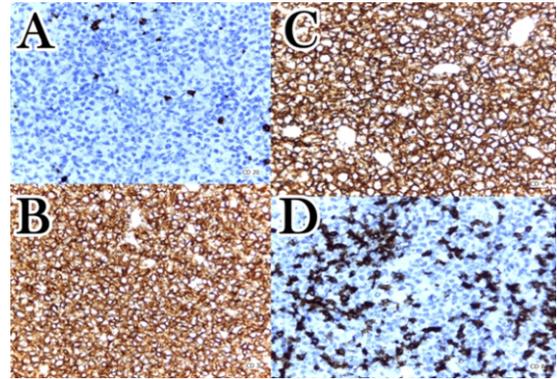


Figura 5.

Microfotografías a 40X, muestra: borde de úlcera gástrica. Linfocitos atípicos medianos a grandes, ligeramente pleomórficos con citoplasma basófilo y abundantes figuras mitóticas. Se disponen formando patrón difuso o en sábana. La inmunohistoquímica muestra: antígenos CD20 negativo (A), CD3 positivo (B), CD4 positivo (C) y CD8 positivo (D)

## DISCUSIÓN

Según Dawson, se considera linfoma “primario” del tracto gastrointestinal si hay lesiones digestivas al momento de la presentación inicial y además: 1) no hay linfadenopatías superficiales, 2) no hay linfadenopatías mediastinales, 3) el recuento leucocitario total y diferencial son normales, 4) los únicos ganglios linfáticos afectados son los de la vecindad inmediata, 5) el hígado y bazo están libres de enfermedad<sup>(6)</sup>. Tokioka, además de los criterios anteriores agrega: ausencia de neoplasia en médula ósea (aspirado y biopsia)<sup>(11)</sup>. Nuestra paciente cumplió con estas condiciones, excepto con la última.

El HTLV-1 tiene un rol importante en la patogenia e incidencia de LCT primarios del tracto gastrointestinal<sup>(7)</sup>. La asociación de LCT gastrointestinales con HTLV-1 es más frecuente en regiones endémicas<sup>(2)</sup>, como el Perú<sup>(8)</sup>. El VEB, es más común que el HTLV-1 y se asocia con linfoma gástrico de células B, pero raramente con LCT<sup>(9,10)</sup>. Nuestra paciente fue seronegativa para HTLV-1 y VEB.

El LCT gástrico primario fue descrito por primera vez por Weis et al. en 1986<sup>(10)</sup>. Las características clínico-patológicas de LCT gástrico no ha sido completamente dilucidadas<sup>(1,11)</sup>. La mayoría de series sobre LCT gástricos han sido publicadas en Asia<sup>(1,2,11)</sup>.

Tokioka y col. reportaron 16 pacientes con linfoma primario del tracto digestivo, de las cuales 10 (62%) fueron de origen células B y 6 (38%) fueron de origen de células T. De los 6 pacientes con LCT primario de origen gastrointestinal, los sitios primarios fueron: estomago (4 casos), íleo-ciego y duodeno (1 caso cada uno). Las características clínicas de los LCT primarios del tracto digestivo HTLV-1 (+) fueron similares a reportes previos, mientras que los casos HTLV-1 (-) fueron muy distintos. Los casos de LCT y HTLV-1 (+) mostraron manifestaciones leucémicas y compromiso tumoral de la piel a un estadio más avanzado de la enfermedad<sup>(1)</sup>. La respuesta a la quimioterapia fue buena en los casos HTLV-1 (-), pero pobre para los casos HTLV-1 (+). Tres casos HTLV-1 (+) murieron 1 año después del diagnóstico, mientras que 2 casos

HTLV-1 (-) sobrevivieron más de un año<sup>(1)</sup>. Por el contrario, en nuestra paciente, la respuesta a la quimioterapia no fue adecuada.

Shimada-Hiratsuka y col. describieron 65 casos de linfomas gástricos primarios, 5 casos (7.7%) fueron LCT. De los pacientes con LCT gástricos, 3 fueron hombres y 2 mujeres; las edades fluctuaron entre 44-73 años. De estos 5 casos, 3 casos fueron HTLV-1 (-) y 2 fueron HTLV-1 (+). Un caso procedía de un área endémica y fue HTLV-1 (-) y uno procedía de área no endémica y fue HTLV-1 (+)<sup>(2)</sup>.

Kawamoto et al. describieron 20 casos de LCT gástrico HTLV-1 (-) en Japón. Reportaron que, la edad media fue 70 años (rango 39-83 años) y el 50% fueron varones. Todos los pacientes presentaron epigastralgia con o sin melena y/o hematemesis; y la ausencia de diarrea persistente o hipoproteinemia severa se observó en 15 casos. El tumor principal se encontró en el cuerpo gástrico en 10 casos (50%), en cardias en 3 casos (15%) y en la transición del cardias al cuerpo en 4 casos (20%); 15 de estos 17 casos (88%) tuvieron tumores en lugares de la curvatura mayor<sup>(11)</sup>. La paciente de nuestro caso presentó úlcera penetrada a nivel de cuerpo gástrico que le ocasionó neumoperitoneo.

La mayoría de LCT gastrointestinales son de tipo helper-inductor (CD3 y CD4), pero ocasionalmente se ha descrito casos con fenotipo supresor-citotóxico (CD8)<sup>(3-5)</sup>. Nuestra paciente presentó los siguientes marcadores positivos: CD3, CD4, CD8 y CD25 (receptor IL-2 de cadenas alfa), correspondiendo a un fenotipo mixto: helper-inductor, supresor-citotóxico.

La eosinofilia es una respuesta dependiente de células T y ha sido descrita como un rasgo característico de muchos LCT del tracto digestivo<sup>(2,3,12)</sup> incluyendo leucemia/linfoma adulto de células T (ATLL)<sup>(13,14)</sup>. Los linfomas asociados a eosinofilia se podrían confundir macroscópicamente e histológicamente con la enfermedad de Crohn, la gastroenteritis eosinofílica y la histiocitosis X<sup>(10,15)</sup>. En nuestra paciente no se encontró eosinofilia periférica ni en el estudio histopatológico.

Este caso corresponde a una rarísima forma de LCT gástrico primario HTLV-1 y VEB negativos. Resulta interesante además por otras razones: 1) lo inusual de la presentación con neumoperitoneo, perforación gástrica, metástasis cutánea, y ausencia de eosinofilia o hipercalcemia, y 2) resalta la importancia de evaluar el estado viral HTLV-1, incluso si procede de un área no endémica.

**Aspectos éticos:** para la elaboración de este artículo se contó con el consentimiento informado de la paciente y con la autorización del Comité de Ética del HRL.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Tokioka T, Shimamoto Y, Tokunaga O, Yamaguchi M. HTLV-I associated and non-associated primary T-cell lymphoma of gastrointestinal tract. *Leuk Lymphoma*. 1993;9(4-5):399-405. doi: 10.3109/10428199309148541.
2. Shimada-Hiratsuka M, Fukayama M, Hayashi Y, Ushijima T, Suzuki M, Hishima T, et al. Primary gastric T-cell lymphoma with and without human T-lymphotropic virus type 1. *Cancer*. 1997;80(2):292-303. doi: 10.1002/(sici)1097-0142(19970715)80:2<292::aid-cncr18>3.0.co;2-p.
3. Shepherd NA, Blackshaw AJ, Hall PA, Bostad L, Coates PJ, Lowe DG, et al. Malignant lymphoma with eosinophilia of the gastrointestinal tract. *Histopathology*. 1987;11(2):115-30. doi: 10.1111/j.1365-2559.1987.tb02616.x.
4. Lunning MA, Vose JM. Angioimmunoblastic T-cell lymphoma: the many-faced lymphoma. *Blood*. 2017;129(9):1095-102. doi: 10.1182/blood-2016-09-692541.
5. Watanabe S, Sato Y, Shimoyama M, Minato K, Shimosato Y. Immunoblastic lymphadenopathy, angioimmunoblastic lymphadenopathy, and IBL-like T-cell lymphoma. A spectrum of T-cell neoplasia. *Cancer*. 1986;58(10):2224-32. doi: 10.1002/1097-0142(19861115)58:10<2224::aid-cncr2820581011>3.0.co;2-3.
6. Dawson IM, Cornes JS, Morson BC. Primary malignant lymphoid tumours of the intestinal tract. Report of 37 cases with a study of factors influencing prognosis. *Br J Surg*. 1961;49:80-9. doi: 10.1002/bjs.18004921319.
7. Hatano B, Ohshima K, Katoh A, Kanda M, Kawasaki C, Tsuchiya T, et al. Non-HTLV-1-associated primary gastric T-cell lymphomas show cytotoxic activity: clinicopathological, immunohistochemical characteristics and TIA-1 expression in 31 cases. *Histopathology*. 2002;41(5):421-36. doi: 10.1046/j.1365-2559.2002.01459.x.
8. Gotuzzo H E, Verdonck B K, González L E, Cabada S M. Virus linfotrópico humano de células T tipo 1 (HTLV-1): Una infección endémica en el Perú. *Rev Peru Med Exp Salud Publica [Internet]*. 2004 [citado 22 Nov 2021];21(4):253-60. Disponible en: [http://www.scielo.org.pe/scielo.php?script=sci\\_arttext&pid=S1726-46342004000400008&lng=es](http://www.scielo.org.pe/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1726-46342004000400008&lng=es).
9. Hui PK, Tokunaga M, Chan WY, Ng CS, Chow J, Lee JC. Epstein-Barr virus-associated gastric lymphoma in Hong Kong Chinese. *Hum Pathol*. 1994;25(9):947-52. doi: 10.1016/0046-8177(94)90017-5.
10. Weis JW, Winter MW, Phylilly RL, Banks PM. Peripheral T-cell lymphomas: histologic, immunohistologic, and clinical characterization. *Mayo Clin Proc*. 1986;61(6):411-26. doi: 10.1016/s0025-6196(12)61975-2.
11. Kawamoto K, Nakamura S, Iwashita A, Watanabe J, Oshiro Y, Nakayama Y, et al. Clinicopathological characteristics of primary gastric T-cell lymphoma. *Histopathology*. 2009;55(6):641-53. doi: 10.1111/j.1365-2559.2009.03430.x.
12. Banerjee D, Walton JC, Jory TA, Crukley C, Meek M. Primary gastric T-cell lymphoma of suppressor-cytotoxic (CD8+) phenotype: discordant expression of T-cell receptor subunit beta F1, CD7, and CD3 antigens. *Hum Pathol*. 1990;21(8):872-4. doi: 10.1016/0046-8177(90)90060-i.
13. Murata K, Yamada Y, Kamihira S, Atogami S, Tsukasaki K, Momita S, et al. Frequency of eosinophilia in adult T-cell leukemia/lymphoma. *Cancer*. 1992;69(4):966-71. doi: 10.1002/1097-0142(19920215)69:4<966::aid-cncr2820690422>3.0.co;2-h.
14. Vukelja SJ, Weiss RB, Perry DJ, Longo DL. Eosinophilia associated with adult T-cell leukemia/lymphoma. *Cancer*. 1988;62(8):1527-30. doi: 10.1002/1097-0142(19881015)62:8<1527::aid-cncr2820620813>3.0.co;2-x.
15. Lewin D, Lewin KJ. CHAPTER 22 - Small Intestine. En: Weidner N, Cote RJ, Suster S, Weiss LM, ed. *Modern Surgical Pathology (Second Edition)* [Internet]. Philadelphia: W.B. Saunders; 2009 [citado 22 Nov 2021]. p. 719-54. doi: <https://doi.org/10.1016/B978-1-4160-3966-2.00022-9>.