

Esplenosis subcutánea, un diagnóstico infrecuente

Subcutaneous splenosis

Pablo D. San Martín , Flavia C. Sibona 

Clínica CMIC. Neuquén,
Argentina.

Los autores declaran no
tener conflictos
de interés.

Conflicts of interest
None declared.

Correspondencia
Correspondence:
Pablo D. San Martín.
E-mail:
pablodsanmartin@
yahoo.com.ar

RESUMEN

La esplenosis es la diseminación, siembra e implantación de tejido esplénico como consecuencia de una lesión del bazo traumática accidental o iatrogénica. Su localización más frecuente es intraperitoneal, pero puede hallarse en localizaciones extraperitoneales (cavidad torácica o subcutánea).

Se presenta un varón de 63 años que consultó por dolor subescapular izquierdo relacionado con un tumor que progresivamente había aumentado de tamaño, sin otra signo-sintomatología. Como antecedentes refirió histiocitosis en tratamiento quimioterápico, infección por COVID-19 y herida de arma de fuego (entrada en línea axilar posterior izquierda). La resonancia magnética permitió detectar lesiones en el espesor del tejido celular subcutáneo entre las fibras del músculo dorsal ancho izquierdo. Se realizó la resección quirúrgica de dicha lesión.

El informe patológico diagnosticó esplenosis subcutánea, una patología de baja incidencia. La infección por COVID-19 generaría cambios sistémicos en la pulpa esplénica heterotópica y podría causar la aparición tardía de la patología.

■ **Palabras clave:** esplenosis, bazo, esplenosis subcutánea, esplenomegalia, COVID-19.

ABSTRACT

Splenosis is the result of seeding and implantation of splenic tissue in any part of the body, usually as the consequence of accidental or iatrogenic splenic injury. The most common location is the peritoneal cavity, but it can also occur in other extraperitoneal sites such as the thorax or subcutaneous tissue.

We present the case of a 63-year-old male patient with pain below the left scapula associated with a tumor that had grown progressively over time. The patient had a history of histiocytosis treated with chemotherapy, COVID-19 and a gunshot injury with the entry site in the left posterior axillary line. The magnetic resonance imaging detected lesions within the subcutaneous tissue among the fibers of the latissimus dorsi muscle. The lesion was surgically resected.

The pathology examination reported subcutaneous splenosis, a rare condition. SARS-CoV-2 infection could produce systemic changes in the heterotopic splenic pulp and could be the reason for the late development of the disease.

■ **Keywords:** splenosis, spleen, subcutaneous splenosis, splenomegaly, COVID-19.

Recibido | Received
27-03-24
Aceptado | Accepted
31-07-24

ID ORCID: Pablo D. San Martín, 0000-0002-8659-998X; Flavia C. Sibona, 0000-0002-7594-9494.

La esplenosis es el crecimiento y desarrollo de tejido esplénico en localizaciones heterotópicas. El término fue empleado por primera vez por Buchbinder y Lipkoff en 1939¹. La diferencia entre esplenosis y bazo ectópico es que este último es de carácter congénito, de mayor frecuencia, localizado en cercanía al hilio esplénico, y con vascularización directa de alguna rama arterial esplénica.

Esta diseminación, siembra e implantación, en cualquier parte del cuerpo, generalmente es consecuencia de una lesión del bazo traumática accidental o iatrogénica^{2,3}. Las localizaciones más frecuentes de esplenosis son la serosa del intestino delgado, el epiploon mayor, el peritoneo parietal, el intestino grueso, el mesenterio, la cara inferior del diafragma y el tórax; los focos extraperitoneales son infrecuentes y los subcutáneos más aún^{1,3}.

Se refiere el caso de un paciente de sexo masculino de 63 años, que consultó por presentar dolor crónico de aproximadamente seis meses de evolución,

sordo, continuo, de baja intensidad, localizado en dorso a nivel subescapular izquierdo, relacionado con la presencia de un tumor que progresivamente aumentó de tamaño en el período indicado. El gradual aumento del tamaño del tumor y de la intensidad del dolor genera la primera consulta al Servicio de Hematología en seguimiento por histiocitosis.

En la consulta refirió antecedentes de diabetes mellitus tipo 2, histiocitosis de células de Langerhans en tratamiento con quimioterapia y radioterapia, herida de arma de fuego con sitio de entrada en línea axilar posterior izquierda a nivel de 8.^a - 9.^a costilla en el año 1978, e infección por COVID-19 cuatro meses antes de la aparición de la sintomatología. En el examen físico de zona subescapular izquierda se observa herida de bala y se palpa, en tejido celular subcutáneo, un tumor de 5 × 3 × 2 cm de consistencia duroelástica firmemente adherido a planos profundos.

Se realizó una ecografía de partes blandas que permitió visualizar una imagen sólida con áreas

hipoecogénicas e hiperecogénicas con características ecográficas de elastofibroma dorsi. Se continuó la evaluación diagnóstica del tumor en pared torácica con resonancia magnética (RM) con contraste, donde se observó la estructura esplénica dismórfica redondeada, con caída de intensidad del parénquima en secuencias con saturación grasa tipo reemplazo grasa y con menor realce que el esperado después del contraste, bazos accesorios e imágenes en el espesor del tejido celular subcutáneo entre las fibras del músculo dorsal ancho izquierdo, la mayor de 23 mm de diámetro con señal de captación similar a tejido esplénico (Fig. 1).

Se decide realizar resección quirúrgica diagnóstica con el fin de determinar el origen del tumor, ante la sospecha de progresión intratamiento de su enfermedad de base (histiocitosis de células de

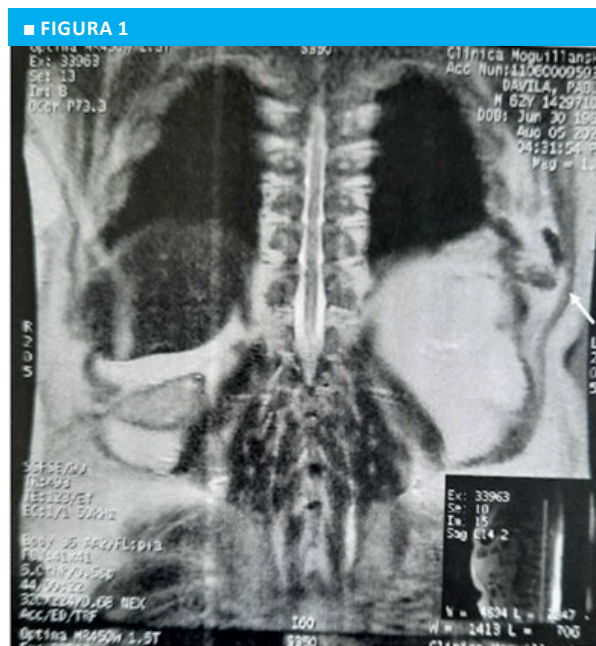
Langerhans) y el aumento de su tamaño. Bajo sedación profunda asociada a anestesia local, se identifica una lesión nodular fibrosa de aproximadamente 5 × 2 × 2,5 cm con centro de consistencia duroelástica en el espesor del músculo dorsal ancho; se realiza la hemisección de la pieza quirúrgica y se observa un área nodular de aproximadamente 20 mm de diámetro amarillada, con nódulo satélite de aproximadamente 0,6 mm de diámetro, ambos nódulos en contacto por uno de sus márgenes (Fig. 2). El paciente permaneció internado 24 horas, y reinició sus actividades físicas, sociales y laborales habituales a los 30 días del posoperatorio. Lleva dieciocho meses de control posoperatorio sin recidivas.

El informe de anatomía patológica arrojó el diagnóstico de esplenosis subcutánea; los cortes histológicos mostraron tejido adiposo que englobaba áreas nodulares constituidas por pulpa roja y pulpa blanca esplénica. Por inmunohistoquímica se realizó la marcación utilizando como sistema de identificación el polímero HRP y como cromógeno la diaminobencidina para determinar la reactividad con CD1a y S100, sin identificar células de Langerhans.

El aumento del tamaño del bazo, esplenomegalia, puede ser causado por diversas enfermedades infecciosas, inflamatorias, tumorales, incluso por medicamentos, que impactan de igual manera en los implantes heterotópicos generando el aumento de su tamaño.

La patogenia de la esplenosis consiste en la reimplantación de pulpa de tejido esplénico generalmente en la cavidad peritoneal como consecuencia de una lesión traumática del bazo; también puede hallarse en otras localizaciones extraperitoneales como en la cavidad torácica o subcutánea. La esplenosis se encuentra en el 26-65% de los casos con antecedentes de traumatismo; dado que son procesos de curso generalmente asintomáticos u oligosintomáticos, su incidencia es de difícil determinación²⁻⁴.

El diagnóstico de la esplenosis generalmente es imagenológico. Su sospecha debe estar siempre pre-



Resonancia magnética. La flecha muestra la esplenosis subcutánea

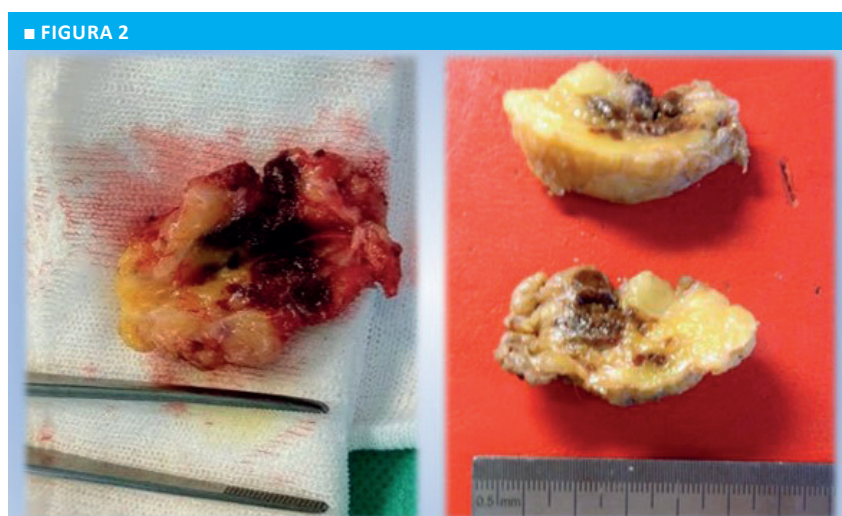


Imagen pieza quirúrgica y corte de pieza de macroscópica. Esplenosis subcutánea

sente ante antecedentes de lesión esplénica. La ultrasonografía, la tomografía computarizada y la resonancia magnética son estudios complementarios que orientan hacia su detección, pero la gammagrafía con hematíes marcados con Tc⁹⁹ permite la confirmación^{2,4,5}, al igual que la exploración y resección quirúrgica con análisis histopatológico de la pieza.

El período de latencia entre el traumatismo y el desarrollo de la esplenosis abarca de 5 a 10 años¹.

Si bien no se han encontrado publicaciones en la literatura que informen casos de esplenosis subcutánea en pacientes con infección reciente por COVID-19, se ha demostrado que la infección con SARS-CoV-2 aumenta las dimensiones del tamaño del bazo⁶, que se ve afectado indirectamente por cambios sistémicos generales; este efecto puede observarse en los implantes heterotópicos generando la esplenosis tardía después de 44 años.

■ ENGLISH VERSION

Splenosis is a condition in which spleen tissue grows and develops in heterotopic locations. The term was first used by Buchbinder and Lipkoff in 1939¹. The difference between splenosis and ectopic spleen is that the latter is a congenital condition that is more prevalent, situated in close proximity to the splenic hilum and has direct vascularization from a splenic artery branch.

Seeding and implantation of splenic tissue in any part of the body is usually the consequence of accidental or iatrogenic splenic injury^{2,3}. The most common sites of splenosis are the small bowel serosa, greater omentum, parietal peritoneum, colon, mesentery, inferior surface of diaphragm and thorax. Extraperitoneal and subcutaneous foci are rare^{1,3}.

We report the case of a 63-year-old male patient who reported chronic, continuous, dull pain below, low in intensity, below the left scapula that began six months before. The pain was associated with a tumor that had grown progressively over time. He sought medical care at the Department of Hematology where he was being followed-up due to histiocytosis.

The patient had a history of type 2 diabetes mellitus and Langerhans cell histiocytosis treated with chemotherapy and radiotherapy. In 1978, he suffered a gunshot injury with the entry site in the left posterior axillary line at the level of the 8th-9th rib. Four months before the onset of symptoms he had COVID-19. Upon physical examination, a scar of a gunshot wound was identified in the left subscapular region and a 5 × 3 × 2 cm tumor with a hard, elastic consistency and a firm attachment to deep planes was palpated in the subcutaneous tissue.

The patient underwent ultrasound examination of the soft tissue mass. There was a solid image with hypoechoic and hyperechoic areas suggestive of elastofibroma dorsi. The diagnostic evaluation of the thoracic wall tumor proceeded with contrast-enhanced magnetic resonance imaging (MRI). A rounded dysmorphic splenic structure was observed, with a hypointense parenchymal image using fat saturation techniques for fat suppression and with less enhancement than expected after contrast injection.

Additionally, there were accessory spleens and images in the subcutaneous tissue between the fibers of the left latissimus dorsi muscle. The largest image had a diameter of 23 mm, with signal uptake similar to that observed in splenic tissue (Fig. 1).

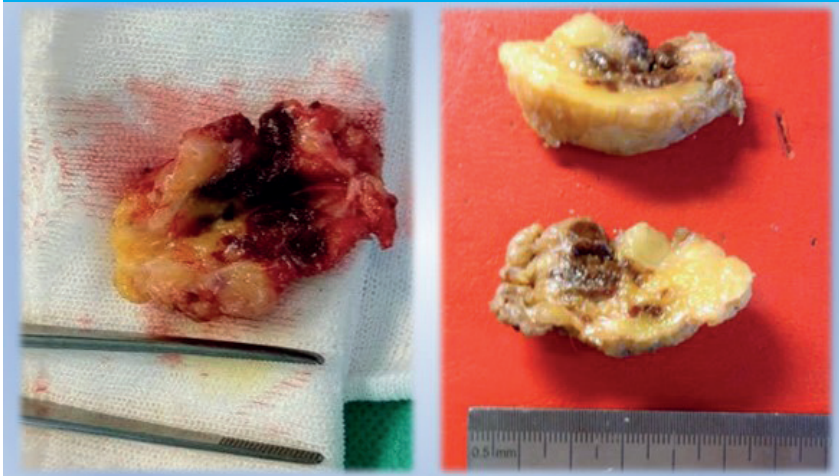
We decided to perform a diagnostic surgical resection to determine the origin of the tumor, as we suspected an intractable progression of the underlying disease (Langerhans cell histiocytosis), and the tumor was increasing in size. The procedure was performed under deep sedation and local anesthesia. A fibrous nodular lesion measuring approximately 5 × 2 × 2.5 cm with a hard elastic center was identified within the latissimus dorsi muscle. The surgical specimen was then divided into two, revealing a brownish nodular area of approximately 20 mm in diameter with a satellite nodule of approximately 0.6 mm in diameter. Both nodules were in contact at one of their edges (Fig. 2). The patient was admitted for 24 hours and then

■ FIGURE 1



Magnetic resonance imaging The arrow indicates subcutaneous splenosis

■ FIGURE 2



Gross examination of the entire and sectioned surgical specimen. Subcutaneous splenosis

resumed his regular physical, social and work activities 30 days after the operation. He has been followed-up for 18 months without recurrences.

The pathological anatomy examination reported subcutaneous splenosis. The histological sections showed adipose tissue encompassing nodular areas consisting of red pulp and white pulp of the spleen. Immunohistochemical tests were conducted using HRP polymer as the identification system and diaminobenzidine as the chromogen. The results indicated negative staining for CD1a and S100, which suggested the absence of Langerhans cells.

Enlarged spleen, or splenomegaly, can be caused by infections, inflammatory diseases, tumors and even drugs, which have the same effect on heterotopic implants, causing them to enlarge.

The pathogenesis of splenosis is the autotransplantation of splenic tissue pulp usually in the peritoneal cavity as a result of traumatic injury to the spleen. It can also occur in other extraperitoneal sites such as the thorax or subcutaneous tissue. A history of

trauma is found in 26-65% of patients with splenosis. As this condition is generally asymptomatic or has minimal symptoms, its incidence is difficult to determine²⁻⁴.

The diagnosis of splenosis is based on imaging tests and should be suspected in cases with a history of splenic injury. Ultrasonography, computed tomography scan and magnetic resonance imaging are the complementary tests that can assist in diagnosis. Technetium-99m-labelled red cell scintigraphy and exploration and surgical resection with histopathological analysis of the specimen are recommended to confirm the diagnosis.

The latent period between the splenic injury and the development of splenosis is 5 to 10 years¹. Although we found no publications in the literature reporting cases of subcutaneous splenosis in patients with recent COVID-19, it has been demonstrated that SARS-CoV-2 infection enlarges the spleen⁶ which is indirectly affected by general systemic changes. This effect could be observed in heterotopic transplants causing late splenosis 44 years later.

Referencias bibliográficas /References

1. Tinoco González J, Suárez Artacho G, Ramallo Solís IM, Padillo Ruiz FJ, Ángel M. Intrahepatic Splenosis as a Differential Diagnosis in Focal Liver Lesions. *Cir Esp*. 2014;92(10):690-1.
2. Andaluz García I, Poza Cordón J, Fernández Martos R. Esplenosis abdominal: un diagnóstico infrecuente. *Acta Gastroenterol Latinoam*. 2020;50(1):69-71.
3. González Cejudo C, Martínez Maestre MA, Daza C, Peregrín I, García Socías E. Esplenosis peritoneal: hallazgo casual e infrecuente en cirugía obstétrica. *Prog Obstet Ginecol*. 2006;49(1):32-5.
4. Khan A, Khan S, Pillai S. Symptomatic Intrathoracic Splenosis More than Forty Years after a Gunshot Injury. *Cureus*. 2019; 11(10):e5985.
5. Ajala O, Yoe L, Decatur T, Cole O. Thoracic Splenosis in the Setting of Abdominal Trauma. *Cureus*. 2022;14(8):e27851.
6. Tahtabasi M, Hosbul T, Karaman E, Akin Y, Konukoglu O, Sahiner F. Does COVID-19 cause an increase in spleen dimensions? Possible effects of immune activation, hematopoietic suppression and microthrombosis. *Clin Imaging*. 2021;79:104-9.