

Leiomioma metastatizante benigno: reporte de caso

Arturo Reyes-Esparza^{1*}, Francisco Miranda-Castañón², Mariana Amaya-Téllez³ y Edgardo González-García⁴

¹Servicio de Cirugía; ²Departamento de Enseñanza e Investigación en Salud; ³Servicio de Radiología; ⁴Servicio de Cirugía. Christus Mugerza del Parque, Chihuahua, Chih., México

Resumen

La leiomiomatosis benigna metastatizante es una enfermedad muy poco frecuente con menos de 200 casos reportados en la literatura. Se trata de una rara variante proliferativa de fibras musculares lisas en lugares alejados al útero en pacientes con antecedente de histerectomía, siendo el pulmón el sitio más frecuente de estas. Estos tumores suelen ser de crecimiento lento y de pronóstico favorable, sus manifestaciones clínicas están en función del sitio que involucren, el número y el tamaño de los tumores. El tratamiento quirúrgico suele ser curativo.

Palabras clave: Leiomioma. Metastatizante. Benigno.

Benign metastasizing leiomyoma: Case report

Abstract

Benign metastatic leiomyomatosis is a very rare disease with less than 200 cases reported in the literature. It is a rare proliferative variant of smooth muscle fibers in places far from the uterus in patients with a history of hysterectomy, the lung being the most frequent site of these. These tumors are usually slow growing and have a favorable prognosis. Their clinical manifestations depend on the site they involve, the number and size of the tumors. Surgical treatment is usually curative.

Keywords: Leiomyoma. Metastatic. Benign.

Introducción

La leiomiomatosis benigna metastatizante es una enfermedad muy poco frecuente que aparece en la mujer premenopáusica. Tiene su origen en la proliferación y metástasis del tejido muscular liso, por lo general procedente de un mioma uterino primario. Se trata de una rara variante proliferativa de fibras musculares lisas en lugares alejados al útero, pero también se han descrito unos pocos casos en hombres y niños. Existen varias teorías, una de las

cuales plantea la proliferación *in situ* de fibras de músculo liso hormonosensible, otra plantea la posibilidad de metástasis vascular proveniente de un émbolo formado de un mioma benigno o la diseminación de células tumorales durante la histerectomía previa¹.

La presencia de un mioma uterino o el antecedente de histerectomía puede orientar el diagnóstico. Se han descrito intervalos entre tres meses y 20 años desde la histerectomía¹.

Correspondencia:

*Arturo Reyes-Esparza
E-mail: dr.reyes.e@gmail.com

Fecha de recepción: 06-02-2022
Fecha de aceptación: 19-04-2022
DOI: 10.24875/j.gamo.22000023

Disponible en internet: 07-07-2022
Gac Mex Oncol. 2022;21(Supl):123-127
www.gamo-smeo.com

2565-005X/© 2022 Sociedad Mexicana de Oncología. Publicado por Permanyer. Este es un artículo *open access* bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

El pulmón es el sitio más frecuente de aparición en donde se manifiestan como múltiples nódulos bien delimitados que frecuentemente pueden ser confundidos con metástasis de algún proceso maligno, con aproximadamente 120 casos reportados en la literatura, sin embargo, se han descrito también casos de metástasis cardíaca, linfática, cerebral, ósea o cutánea². Estos tumores suelen ser de crecimiento lento y de pronóstico favorable, sus manifestaciones clínicas están en función del sitio que involucren, el número y el tamaño de los tumores².

Presentación de caso

Se trata de una mujer de 40 años que acude por primera vez al servicio de cirugía oncológica referida por el servicio de cirugía general.

La paciente se refiere originaria y residente de la Ciudad de Chihuahua, casada, cristiana y operadora de línea de producción, etilismo positivo a razón de 12 cervezas cada 7 días de 21 años de evolución, niega tabaquismo y otras toxicomanías.

Inicio de vida sexual activa a los 19 años G3 A1 P1 C1, primer embarazo a los 20 años con resolución a término, último embarazo a los 24 años con resultado de aborto espontáneo. Refiere haber alimentado a cada producto con seno materno durante seis meses. Fecha de la última menstruación a los 25 años por histerectomía simple por miomatosis uterina.

Acude por primera vez con médico general un mes previo a su llegada a nuestro servicio debido a que nota una parte de su abdomen sobreelevada y a la palpación nota masa, este la envía al servicio de cirugía general bajo sospecha de hernia. El cirujano general solicita tomografía computarizada (TC) de abdomen y pelvis con contraste oral e intravenoso en donde se observa lesión de tejidos blandos adyacente a la pared abdominal de los rectos anteriores con refuerzo de más de 20 UH de forma homogénea con el medio de contraste con diámetros máximos de 37 x 40 x 29 mm infraumbilical y dos lesiones más con las mismas características anteriores y suprapúbicas. También se solicitó sonografía de pared abdominal, en la que se nos reporta una lesión por encima de los rectos anteriores en tejido celular subcutáneo de ecogenicidad heterogénea predominantemente hipoecoica con mínima vascularidad a la aplicación de Doppler color (Fig. 1) con diámetros de 39 x 28 x 43 mm (Fig. 2). Integrando el diagnóstico de tumores de pared abdominal, por lo que se solicitan estudios de extensión, laboratorios y se solicita biopsia por aguja de corte.

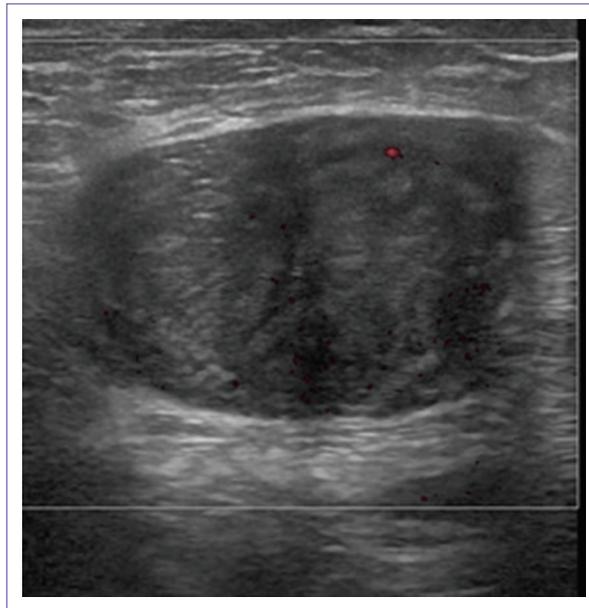


Figura 1. Lesión de pared abdominal de ecogenicidad heterogénea por encima de los rectos.

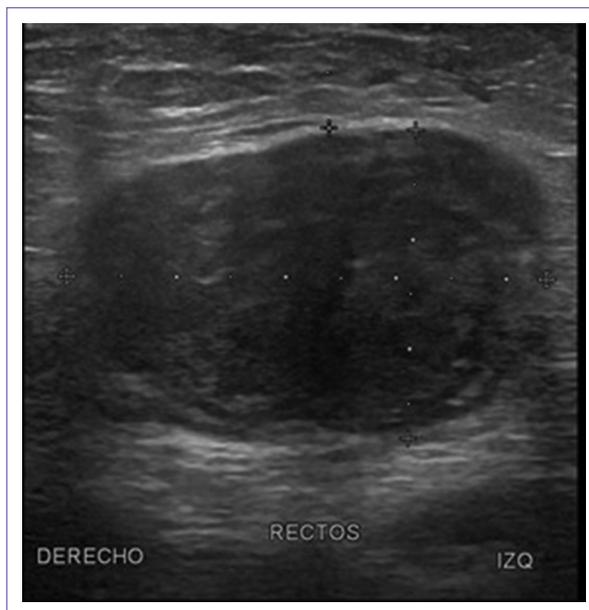


Figura 2. Doppler color que revela mínima vascularidad de la lesión en cuestión.

La paciente acude a cita subsecuente 30 días después con la mayoría de los resultados de los estudios solicitados.

Se presenta resultado de biopsia de aguja de corte como biopsia de tejidos blandos en región epimuscular infraumbilical a considerar en primer término de origen

fibroblástico-miofibroblástico de tipo tumor fibroso solitario, sin atipias, mitosis o necrosis positivo para STAT-6 (100%), actina de músculo liso + (100%), bcl-2 + (100%), desmina + (100%), con un índice de proliferación celular Ki67 + del 1%, negativo para CD34 y S-100. Con base en estos resultados se descarta fibromatosis o tumor desmoide, lipomas fusocelulares, angiofibromas celulares, cicatriz, tumores neurogénicos y sarcoma sinovial monofásico. TC de tórax sin hallazgos significativos. Se solicita resonancia magnética (RM) de pelvis I y II, encontrando una lesión redonda localizada con márgenes circunscritos que el contraste con gadolinio presenta realce heterogéneo (Fig. 3), que en secuencia T1 se observa hipointensa y en T2 heterogénea predominantemente hipointensa (Fig. 4).

Por lo que se le propone a la paciente resección amplia de las lesiones y colocación de malla abdominal, aceptando la paciente la intervención.

La paciente es intervenida quirúrgicamente; se realiza incisión en huso sobre cicatriz de histerectomía previa, con la cual se identifica la actividad tumoral logrando resecarla en su totalidad con bordes macroscópicos negativos, se amplían bordes quirúrgicos profundos y se accede a cavidad peritoneal en donde se hace liberación de adherencias, se explora hueco pélvico encontrando quiste ovárico simple sin datos de actividad tumoral. Como accidente se reporta la lesión térmica de íleon con electrocauterio la cual fue reparada con seda 3-0. Se cierra peritoneo con crómico 2-0, se coloca malla Dual Mesh tal como estaba proyectado, se fija con Prolene, se coloca drenaje Blake 19 en sitio quirúrgico y se afronta tejido subcutáneo en dos planos. Se envía pieza quirúrgica a patología. La paciente pasa en buenas condiciones a recuperación.

Transcurre postoperatorio de forma satisfactoria, tolerando dieta líquida el mismo día de la intervención. Es dada de alta al día siguiente.

Acude a cita 14 días después, en donde se retiran grapas de piel y drenaje, para el momento se cuenta con resultado de patología definitivo que muestra los siguientes resultados (Fig. 5): leiomioma de pared abdominal de 3.5 cm de diámetro (Fig. 6) con bordes negativos, siendo el borde lateral derecho más cercano con 2 mm de margen.

Motivo por el cual la paciente es asignada únicamente para seguimiento.

Discusión

Existen diversos patrones de crecimiento de los tumores de músculo liso con características histológicas

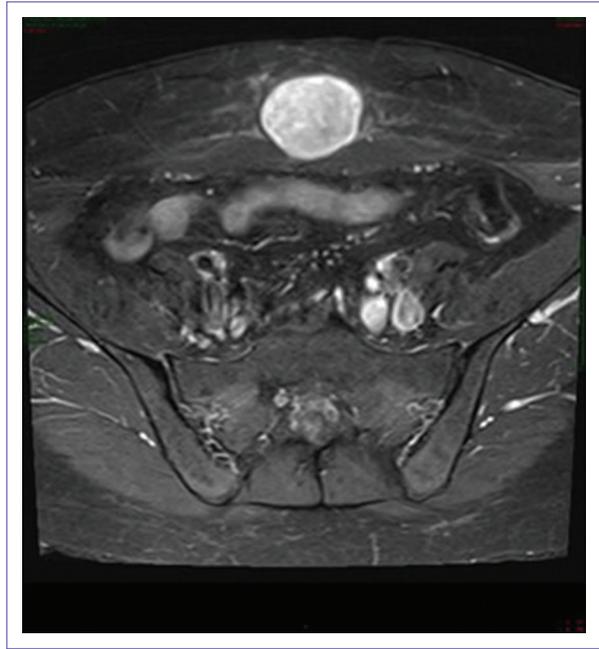


Figura 3. Masa en resonancia magnética secuencia T1 tras administración de contraste.

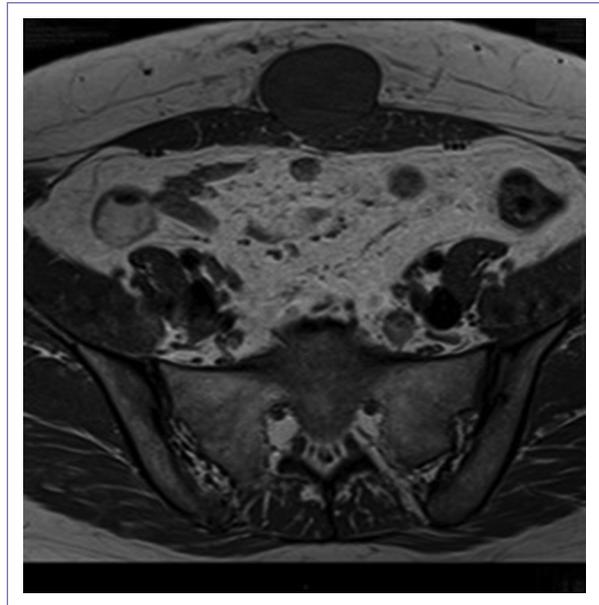


Figura 4. Masa en resonancia magnética secuencia T1 simple.

idénticas a los leiomiomas uterinos clásicos; uno de estos patrones es el leiomioma metastatizante, el cual es una condición muy rara en la que se encuentran en sitios distantes tumores de músculo liso generalmente múltiples, los cuales presentan prácticamente nula actividad mitótica¹.

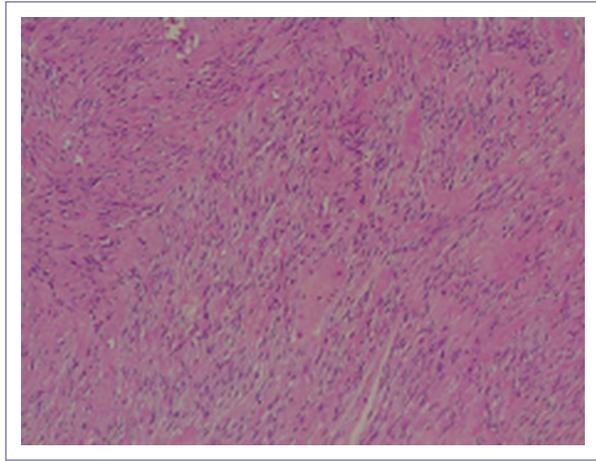


Figura 5. Corte histológico de la pieza obtenida congruente con leiomioma.



Figura 6. Pieza entera reseçada durante la cirugía.

Esta condición se presenta en mujeres en edad fértil en las cuales en casi todos los casos existe antecedente de miomatosis uterina previa, estos generalmente son un hallazgo incidental y se presentan de forma asintomática. La edad de aparición promedio es los 43.7 años, su rango de tamaño es muy variable, yendo desde los 2 x 3 mm hasta 27 x 44 mm, existen muy pocos casos en la literatura mayores de 20 cm². Estudios han demostrado la monoclonidad, también se han demostrado deleciones recurrentes en los cromosomas 19q y 22p en subconjuntos propensos a mostrar metástasis. Otras mutaciones cromosómicas que se han encontrado repetidamente son pérdida de 1p, 2q, 3q, 7, 10q y 11q³.

La mayoría de estas pacientes demuestran una evolución indolente, siendo el sitio de crecimiento el principal determinante de la sintomatología, muchos de esos son

hallazgos durante estudios de imagen indicado por otra razón. Algunas de las manifestaciones poco comunes de estos tumores son dolor de pecho, hemoptisis, neumotórax, hemotórax y empiema, es por este tipo de manifestaciones que también puede ser confundida con lifangioliomiomatosis. Otras manifestaciones extratorácicas son ictericia, dolor abdominal e incluso neuropatías por atrapamiento³. Al ser el pulmón el sitio mas común de aparición en estudios de imagen, estos se manifiestan como nódulos bien circunscritos generalmente bilaterales, si bien pueden ser únicos; presentan realce homogéneo, la cavitación es poco frecuente y rara vez producen neumotórax^{4,5}. El principal diagnóstico que considerar en este caso serán las lesiones metastásicas⁴. El uso de tomografía con emisión de positrones con 18F-fluorodesoxiglucosa continúa siendo controvertido⁵.

El diagnóstico se basará en estudio histopatológico, siendo el principal diagnóstico diferencial el leiomiosarcoma, en donde una baja densidad de células y un bajo índice mitótico nos orientarán al diagnóstico de leiomioma, todo tumor con áreas de necrosis coagulativa debe ser considerado como leiomiosarcoma. La inmunohistoquímica juega un papel importante en el diagnóstico, siendo la MIB-1 positiva en más del 15% de las células de un leiomiosarcoma³.

Los leiomiomas característicamente son positivos a receptores de estrógenos y progesterona, también suelen ser positivos para actina de músculo liso, anticuerpos anti-músculo liso (SMA Smooth Muscle Antibody, por sus siglas en inglés), desmina y vimentina. De manera contraria suelen ser negativos para pancitoqueratina, S-100 y CD 34, siendo esto otro dato importante para el diagnóstico^{3,6,7}.

Aún no se ha definido cuál es el tratamiento ideal para esta condición, las pacientes generalmente cursan con un pronóstico favorable, en aquellas que se encuentran asintomáticas la mera observación puede ser suficiente. Dentro de las opciones terapéuticas se encuentra la resección quirúrgica y la ooforectomía en aquellos tumores que muestren receptores hormonales positivos⁶. Otra opción en pacientes premenopáusicas es el uso de agonistas de la hormona liberadora de gonadotropina, en donde se ha demostrado una disminución de hasta el 30% del tamaño de estos⁵. Los moduladores de los receptores de estrógeno también se han usado con este fin; otra opción atractiva en las pacientes posmenopáusicas es el uso de inhibidores de la aromataasa, sobre todo en aquellas pacientes malas candidatas a tratamiento quirúrgico o en aquellas con tumores no reseçables^{7,8}. Si bien la mayoría de los casos ocurren en pacientes posmenopáusicas,

el tratamiento debe ser individualizado con base en el tamaño, la localización y estado hormonal⁹.

Conclusión

Al tener un caso de tumoraciones múltiples bien delimitadas, sobre todo en pulmón en estudios de imagen en mujeres con el antecedente de histerectomía por miomatosis uterina, la miomatosis metastatizante benigna debe ser sospechada, por lo que se deben estudiar sus antecedentes ginecoobstétricos. Esta patología suele cursar asintomática o con leves molestias de acuerdo con el sitio de crecimiento. La principal prioridad debe ser descartar una neoplasia maligna. Dentro del arsenal terapéutico la resección quirúrgica sigue siendo de primera intención. Es importante el seguimiento a largo plazo debido a que estos tumores pueden presentar recurrencia.

Financiamiento

La presente investigación no ha recibido ninguna beca específica de agencias de los sectores públicos, comercial o con ánimo de lucro.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han

realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

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.

Bibliografía

1. Yuan X, Sun Y, Jin Y, Xu L, Dai H, Wang J, et al. Multiple organ benign metastasizing leiomyoma: A case report and literature review. *J Obstet Gynaecol Res.* 2019;45(10):2132-6.
2. Aoki K, Yamamoto T, Terauchi R, Mori T, Shirai T, Kitawaki J. Benign metastasizing leiomyoma in femur and thigh with a history of uterine leiomyoma: A case report and literature review. *J Obstet Gynaecol Res.* 2021;47(2):812.
3. Pacheco-Rodríguez G, Taveira-DaSilva AM, Moss J. Benign metastasizing leiomyoma. *Clin Chest Med.* 2016;37(3):589-95.
4. Teixeira BC, Mahfouz K, Escuissato DL, Costa AF, Noronha Ld. Solitary benign metastasizing leiomyoma: imaging features and pathological findings. *J Bras Pneumol.* 2014;40(2):193-5.
5. Más Sánchez A, Jiménez Yáñez R, Franco López Ángeles, García Navarro F, Arias Laverde ME, Humanes López L. Leiomiomatosis benigna metastatizante, entidad infrecuente. Revisión de la Literatura [Internet]. *Seram, Sociedad Española de Radiología Médica;* 2018. Disponible en: <https://piper.espacio-seram.com/index.php/seram/article/view/641>
6. Oliveira MJ, Sanches A, Miranda J. A misleading tumor. Benign metastatic leiomyoma. *Arch Bronconeumol.* 2016;52(7):391.
7. Chalanki MV, Dattatreya S, Padmaja P, Dayal M, Parakh M, Rao VVSP. Granulosa cell tumor induced massive recurrence of post hysterectomy leiomyoma. *Indian J Nucl Med.* 2014;29(3):179-81.
8. Kyriakopoulos K, Domali E, Stavrou S, Rodolakis A, Loutradis D, Drakakis P. Recurrent benign leiomyomas after total abdominal hysterectomy. Rich or poor estrogenic environment may lead to their recurrence? *Int J Surg Case Rep.* 2018;44:191-3.
9. Fan R, Feng F, Yang H, Xu K, Li S, Yoy Y, et al. Pulmonary benign metastasizing leiomyomas: a case series of 23 patients at a single facility. *BMC Pulm Med.* 2020;20(1):292.