Angioleiomioma uterino: a propósito de un caso

Uterine angioleiomyoma: report of clinical case

Tamara Pradillo^{1*}, Juan M. Rodríguez¹, Angela B. Ortiz², Susana Sutil¹, Yurena Díaz¹ y José A. Sevilla¹

¹Servicio de Ginecología y Obstetricia; ²Servicio de Anatomía Patológica. Hospital Universitario Infanta Elena, Valdemoro, Madrid, España

Resumen

El angioleiomioma es un tumor benigno perivascular que raramente se localiza en el útero. Se expone el caso de un angioleiomioma de gran tamaño en una mujer de 30 años con sangrado menstrual abundante y masa abdominal palpable. La paciente fue sometida a miomectomía y diagnosticada de angioleiomioma por el estudio histológico. Ante síntomas persistentes, la angiomiomectomía o la histerectomía simple son eficaces.

Palabras clave: Angioleiomioma. Leiomioma vascular. Útero.

Abstract

Angioleiomyoma is a benign perivascular tumor that is rarely located in the uterus. This paper presents a case of a large angioleiomyoma in a 30-year-old woman with heavy menstrual bleeding and a palpable abdominal mass. The patient underwent myomectomy and was diagnosed with angioleiomyoma by histological examination. For persistent symptoms, angiomyomectomy or simple hysterectomy are effective.

Key words: Angioleiomyoma. Vascular leiomyoma. Uterus.

Introducción

El angioleiomioma o leiomioma vascular es una variante poco común de leiomioma benigno. Se origina en el tejido mesenquimatoso y está compuesto por células de músculo liso y vasos de paredes gruesas¹. Se localiza con mayor frecuencia en las extremidades inferiores y rara vez afecta a otras regiones del cuerpo², representando del 0,34% al 0,40% de los casos de leiomiomas uterinos¹. Es posible que se produzca un infradiagnóstico al etiquetarlo como mioma típico. Su presencia en la literatura es escasa, con un número limitado de casos publicados³. Los objetivos al reportar este caso son familiarizar a los ginecólogos sobre este raro tumor uterino, ignorado en las clasificaciones internacionales, y revisar la literatura publicada.

Caso clínico

Mujer de 30 años, nulípara, que acude a consulta en noviembre de 2020. Refiere un patrón menstrual 4-5/28-30 con menstruación abundante los primeros 2 días, percepción de masa abdominal y deseo genésico. Aporta informes de control de años previos en otro centro, con ecografía en septiembre de 2012 en la que se objetiva un mioma subseroso anterior bilobulado de 40 × 35 mm. En junio de 2017 se realiza una nueva ecografía que muestra un mioma bilobulado anterior con un lóbulo mayor de 87,9 × 70,1 mm y un lóbulo menor de 32,1 × 55,4 mm. En la resonancia magnética (RM) se informa de varios miomas; el mayor, de 7,5 cm, en la cara anterior con impronta en la línea media endometrial. La paciente fue tratada con acetato

Correspondencia:

*Tamara Pradillo

E-mail: tamara.pradillo@quironsalud.es

0048-766X / © 2021 Sociedad Chilena de Obstetricia y Ginecología. Publicado por Permanyer. Éste es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Fecha de recepción: 07-01-2021

Fecha de aceptación: 04-11-2021

DOI: 10.24875/RECHOG.M21000029

Disponible en internet: 27-10-2021

Rev Chil Obstet Ginecol. 2021;86(5):470-473

www.rechog.com

de ulipristal más de un ciclo, sin reflejarse el número de ciclos. En octubre de 2019 se realiza miomectomía por laparotomía, en la que se describe un útero acorde a 25 semanas de gestación, con extracción de un mioma de 5 cm y posible entrada en la cavidad endometrial. La anatomía patológica informa de cambios morfológicos compatibles con leiomioma. En la ecografía de control realizada en julio de 2020 se observa un mioma en la cara anterior uterina tipo III-VI de la clasificación de la Federación Internacional de Ginecología y Obstetricia (FIGO), de $17 \times 8,2 \times 5$ cm, sin patrón vascular anómalo ni de baja resistencia.

En la ecografía realizada en consulta en noviembre de 2020 se objetiva una masa sólida heterogénea de apariencia multilobulada y contorno definido en la cara anterior uterina, sugestiva de mioma de tipo III-VI FIGO, de $90 \times 148 \times 150$ mm, con captación moderada en el estudio Doppler color. Por RM se ve que la masa uterina desplaza la línea media endometrial, alcanzando una extensión de $16 \times 15 \times 9$ cm, y se realza intensamente tras la administración de contraste, y además hay dos nódulos de 2,5 y 5 cm en posición caudal y anterior (Fig. 1). No hay ascitis ni sospecha de patología anexial o endometrial en las pruebas de imagen. En la exploración se palpa el útero acorde a 22 semanas de gestación.

Se indica cirugía y se practica laparotomía media, previa administración de 1 g de ácido tranexámico, visualizando un gran mioma dependiente de la cara anterior uterina adherido junto con el ligamento redondo izquierdo al peritoneo parietal. Tras la adhesiolisis se realiza miomectomía, durante la cual se observan múltiples lóculos de mioma de consistencia blanda con plano de clivaje mal definido. Durante la técnica se produce una entrada en la cavidad endometrial. El defecto se sutura con puntos sueltos en varias capas. Se aplica ácido hialurónico como antiadherente. La pérdida hemática durante la intervención no es llamativa (Fig. 2). Se pauta ácido tranexámico, 500 mg/8 h, durante la hospitalización.

En el primer día del posoperatorio, la paciente presenta palidez mucocutánea y anemia grave con hemoglobina de 6,7 g/dl, estando hemodinámicamente estable y con buen control del dolor. Se transfunden tres concentrados de hematíes, logrando una hemoglobina posttransfusional de 9,9 g/dl. Recibe el alta al segundo día tras la cirugía, con evolución favorable y ecografía sin miomas ni hematomas en el control posterior al mes.

La anatomía patológica revela dos nódulos de 2,5 y 5 cm compatibles con leiomiomas, un nódulo de 12 cm que en su interior alberga una cavidad irregular de pared parda sin lesiones sospechosas, un nódulo de

Figura 1. Pruebas de imagen. **A:** RM, corte longitudinal. Gran masa heterogénea multilobular con límites definidos que depende de cara anterior de útero y desplazan línea media endometrial. Nódulo de 5 cm subseroso en istmo. **B:** RM, corte coronal. La masa realza intensamente tras la administración de contraste. Nódulo de 2,5 cm derecho y caudal. **C:** ecografía transvaginal, corte transversal. Gran masa heterogénea multilobular de contorno definido”.

Figura 2. **A:** histerotomía. Se observa mioma multilobular. **B:** pieza quirúrgica compuesta por cuatro tumoraciones nodulares”.

16 cm y fragmentos de 3,5, 5,5 y 9×3 cm con superficie interna fibrosa arremolinada y firme. Estas cinco piezas presentan, en el examen microscópico, áreas miomatosas con estructuras vasculares, algunas dilatadas y otras en patrón más microvascular, sin atipia, compatibles con angioleiomioma (Fig. 3).

Discusión

El angioleiomioma se suele desarrollar entre la tercera y la sexta décadas de la vida². Cursa

Figura 3. A y B: hematoxilina eosina 2x: Áreas de proliferación capilar. C: técnica inmunohistoquímica CD34: marcador vascular que permite la mejor valoración de los capilares y vasos con configuración microvascular/capilar. D: Hematoxilina eosina 1x: áreas de proliferación de vasos dilatados irregulares (cavernoso), que con técnica inmunohistoquímica para E: CD34 y F: CD31 se comprueba su naturaleza vascular”.

habitualmente con dismenorrea intensa, dolor abdominal y sangrado uterino anormal². También puede dar lugar a anemia grave, coagulopatía de consumo y rotura espontánea con hemorragia intraabdominal⁴⁻⁶. En el caso reportado, la hemoglobina preoperatoria era de 11 g/dl. La anemia grave se produjo tras la intervención, con necesidad de transfusión, a pesar de la percepción subjetiva de que no hubo un sangrado importante durante la cirugía, por lo que los autores lo relacionan con la cantidad de sangre retenida en la pieza.

Los angioleiomiomas pueden ser submucosos, intramurales y subserosos, y también pediculados⁷⁻⁹. Su diagnóstico preoperatorio rara vez es posible, ya que no tienen un patrón único en las técnicas de imagen (ecografía, RM o tomografía computarizada). Puede presentarse como una masa multilobulada con configuración sólida y laminada, y con contenido quístico y multiseptado, o como una masa única con o sin signos de necrosis. En la mayoría de las ocasiones es indistinguible de un mioma típico con o sin degeneración^{8,10-12}. Pierro et al.¹³ sugieren que debe considerarse cuando, en una masa de tejido blando uterino bien delimitada, la tomografía computarizada muestra estructuras prominentes, tortuosas y con realce de tipo vascular, realce similar a arena e importante varicocele

pélvico con evidente hipertrofia de las arterias uterinas. Estas características pueden orientar, pero no son patognomónicas ni estarán presentes en todos los casos, sobre todo si el mioma no es de gran tamaño. Cuando son de gran tamaño pueden confundirse con tumores malignos de ovario¹².

En todos los casos referidos, al igual que en el reportado en este artículo, el diagnóstico fue anatomopatológico. Las superficies cortadas suelen ser blancas y en espiral, con o sin áreas congestionadas o hemorrágicas, o pueden presentar un aspecto abigarrado con áreas de color marrón rosado y gris. Algunos pueden estar multilobulados, con quistes llenos de sangre². Microscópicamente se distinguen tres tipos histológicos: el tipo sólido o capilar, con patrón microvascular, compuesto por vasos estrechos entrelazados con fascículos gruesos de músculos lisos; el tipo venoso, compuesto por vasos gruesos intercalados con fascículos de músculos lisos; y el tipo cavernoso, con vasos ensanchados y menor cantidad de músculo liso^{1,5}. El caso presentado reúne dos tipos de angioleiomioma uterino: sólido o capilar y cavernoso. En el estudio anatomopatológico también se utilizan técnicas inmunohistoquímicas, como CD31, CD34, D2-40 y actina, para la adecuada valoración del componente vascular. Cuando predomina el componente vascular, como en el angioleiomioma, se requiere el diagnóstico diferencial con un hemangioma o una malformación arteriovenosa⁷.

Ante síntomas persistentes está indicada la cirugía con exéresis completa de la tumoración, que se realizará mediante miomectomía sin márgenes que incluya la cápsula o mediante histerectomía simple. La elección depende de los síntomas de la paciente y de su deseo de preservar la fertilidad^{2,11,13}. Durante la cirugía del caso presentado, la consistencia blanda del mioma hacía pensar que podría tratarse de un mioma degenerado o con cambios secundarios al tratamiento con acetato de ulipristal; el hecho de que de no tuviera un plano de clivaje definido con el miometrio, al igual que describen Sharma et al.⁴, sugería la sospecha de un adenomioma.

La literatura expone que la mayoría de las pacientes tienen una buena recuperación tras la cirugía, con mejoría de los síntomas, sin que se hayan objetivado recurrencias en los casos publicados^{2,11,13}.

Conclusiones

El angioleiomioma uterino es un tumor benigno raro que puede cursar con síntomas comunes, como dolor abdominal o sangrado uterino anormal, pero que por su componente vascular puede dar lugar a anemia

grave prequirúrgica o posquirúrgica, e incluso a coagulopatía de consumo o rotura espontánea. Su diagnóstico definitivo es anatomopatológico, pues es complejo sospecharlo en las pruebas de imagen, sobre todo si no se conoce esta patología. Para obtener información sobre su manejo, a pesar de que no difiera del indicado en otros leiomiomas benignos, hay que acudir a la literatura publicada como única fuente. Se informa de este caso para familiarizar a los ginecólogos sobre este raro tumor uterino, y también para enfatizar la necesidad de incluirlo en la clasificación de la Organización Mundial de la Salud de tumores del tracto genital femenino, tal como defienden otros autores.

Financiamiento

No se ha obtenido ninguna fuente de financiamiento.

Conflicto de intereses

No se ha declarado ningún 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. Weiss SW, Goldblum JR. Benign tumors of smooth muscle. En: Enzinger and Weiss's Soft Tissue Tumors. 4th ed. St. Louis, MO: Mosby; 2001. p. 699-700.
2. Garg G, Mohanty SK. Uterine angioleiomyoma: a rare variant of uterine leiomyoma. Arch Pathol Lab Med. 2014;138:1115-8.
3. Gupta M, Suryawanshi M, Kumar R, Peedicayil A. Angioleiomyoma of uterus: a clinicopathologic study of 6 cases. Int J Surg Pathol. 2018;26:18-23.
4. Sharma C, Sharma M, Chander B, Soni A, Soni PK. Angioleiomyoma uterus in an adolescent girl: a highly unusual presentation. J Pediatr Adolesc Gynecol. 2014;27:e69-71.
5. Handler M, Rezai F, Fless KG, Litinski M, Yodice PC. Uterine angioleiomyoma complicated by consumptive coagulopathy. Gynecol Oncol Case Rep. 2012;2:89-91.
6. Culhaci N, Ozkara E, Yüksel H, Ozsunar Y, Unal E. Spontaneously ruptured uterine angioleiomyoma. Pathol Oncol Res. 2006;12:50-1.
7. Zizi-Sermpetzoglou A, Myoteri D, Arkoumani E, Koulia K, Tsavari A, Alamanou E, et al. Angioleiomyoma of the uterus: report of a distinctive benign leiomyoma variant. Eur J Gynaecol Oncol. 2015;36:210-2.
8. Sahu L, Tempe A, Agrawal A. Angioleiomyoma of uterus. J Obstet Gynaecol. 2012;32:713-4.
9. McAdams CR, Athanasatos G, Jorizzo JR. Case report of a uterine angioleiomyoma. Ultrasound Q. 2016;32:384-6.
10. Sakai Y. Epithelioid vascular leiomyoma of the uterus mimicking glomangiomyoma. Arch Gynecol Obstet. 2007;275:59-61.
11. Hong JA, Heo GE, Kwak JJ, Chung SH. A case report of angioleiomyoma of uterus. Obstet Gynecol Sci. 2017;60:494-7.
12. Singh S, Naik M, Bag ND, Patra S. Angioleiomyoma of uterus masquerading as malignant ovarian tumor. J Midlife Health. 2017;8:145-7.
13. Pierro A, Rotondi F, Cilla S, De Ninno M, Mattoni M, Berardi S, et al. Giant angioleiomyoma of uterus: a case report with focus on CT imaging. Radiol Case Rep. 2018;13:371-5.