

clínica e investigación en ginecología y obstetricia

chains amoniporte or ginecología y obstetricia

www.elsevier.es/gine

CASO CLÍNICO

Leiomioma ovárico primario en paciente posmenopáusica. Posibilidad dentro del diagnóstico diferencial de las neoplasias de ovario



- J. Rodríguez Sánchez-Reyman^{a,*}, M. Moreno López^a, Á. Gutiérrez Domingo^b, I. Rodríguez Jiménez^a y M. Pantoja Garrido^a
- ^a Unidad de Gestión Clínica de Obstetricia y Ginecología, Hospital Universitario Virgen Macarena, Sevilla, España

Recibido el 24 de enero de 2021; aceptado el 5 de mayo de 2021 Disponible en Internet el 28 de junio de 2021

PALABRAS CLAVE

Leiomioma; Ovario; Neoplasia ovárica; Diagnóstico diferencial Resumen El leiomioma primario de ovario es un tipo de tumor sólido muy infrecuente, detectándose como hallazgo incidental. El estudio preoperatorio por imagen es muy limitado por lo que es imprescindible el estudio anatomopatológico, que logre distinguirlo de otros tumores sólidos de ovario. Se presenta un caso atípico de leiomioma primario ovárico en una mujer posmenopáusica de 69 años, sometida a cirugía debido a una masa anexial izquierda de gran tamaño sospechosa de cistoadenocarcinoma en el estudio preoperatorio. El leiomioma ovárico primario debe ser considerado como posibilidad dentro del diagnóstico diferencial de las masas anexiales.

KEYWORDS

Leiomyoma; Ovary; Ovarian neoplasms; Differential diagnosis

Primary ovarian leiomyoma in a postmenopausal patient. Possibility within the differential diagnosis of ovarian neoplasms

© 2021 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Abstract Primary ovarian leiomyoma is a rare, asymptomatic, ovarian tumour that is diagnosed incidentally. Preoperative study based on imaging is limited so an anatomopathological study is essential for diagnosis to differentiate it from other solid ovarian tumours. We hereby report an atypical case of a primary ovarian leiomyoma in a postmenopausal 69-year-old woman,

Correo electrónico: juliarodriguezsr@gmail.com (J. Rodríguez Sánchez-Reyman).

^b Unidad de Gestión Clínica de Anatomía Patológica, Hospital Universitario Virgen Macarena, Sevilla, España

^{*} Autor para correspondencia.

diagnosed during surgery for suspected ovarian cancer. It is necessary to include primary ovarian leiomyoma within the differential diagnosis of the different adnexal tumours. © 2021 Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

El leiomioma primario de ovario es un tipo de tumor sólido muy poco frecuente, que representa el 0,5-1% de todas las patologías ováricas benignas¹. Se trata de formaciones de pequeño tamaño, asintomáticas, que se diagnostican de forma accidental. En masas de mayor tamaño, pueden provocar dolor por compresión de estructuras pélvicas advacentes o como consecuencia de la propia torsión del ovario². Se han propuesto numerosas teorías sobre su origen. A pesar de presentar una naturaleza histológica benigna, se requiere una evaluación anatomopatológica pormenorizada para poder diferenciarlo de otros tumores sólidos del ovario, dada la facilidad con la que estos pueden confundirse con fibromas, tecomas o incluso neoplasias malignas³. Hasta un 80% de los casos aparecen en mujeres en edad reproductiva, siendo generalmente unilaterales. El tratamiento de elección en mujeres posmenopáusicas es la salpingooforectomía bilateral4.

A continuación se presenta el caso de una mujer posmenopáusica de 69 años diagnosticada de un leiomioma ovárico primario. El objetivo de este trabajo es realizar una revisión bibliográfica de la literatura publicada sobre esta patología, centrándonos en su diagnóstico diferencial con los distintos tipos de tumores anexiales y en el manejo terapéutico.

Caso clínico

Se expone el caso de una mujer de 69 años, menopaúsica, nuligesta, con antecedentes personales de obesidad, hipertensión arterial e intervenida de apendicectomía. No presentaba estudios de imagen ni seguimientos ginecológicos previos. Acudió derivada a consulta de Ginecología desde su centro de salud por hallazgo en ecografía abdominal de masa pélvica, solicitada por dolor abdominal en estudio. En dicha ecografía se objetivó una masa heterogénea sólidoquística bien definida de $134 \times 95 \times 121 \, \text{mm}$ de probable origen ginecológico, con regiones anecoicas y septos gruesos, focos groseros de calcio, hipovascular al aplicar Doppler (fig. 1). En consulta, se realizó una exploración ginecológica mediante tacto bimanual, palpándose una masa abdominal que ocupaba el hipogastrio hasta 3 traveses de dedo por debajo de ombligo, seguida de una ecografía transvaginal, observándose un útero con endometrio lineal y mioma intramural de 5 cm, siendo imposible delimitar el área anexial por la obesidad de la paciente. Por ello, se amplió el estudio con una tomografía axial computarizada (TAC) y con una resonancia magnética nuclear (RMN). En la TAC no se observó enfermedad intraperitoneal ni metástasis a distancia, siendo considerado el cistoadenocarcinoma de ovario como primera opción diagnóstica; mientras que en la RNM se describía una masa quística a nivel de ovario izquierdo del mismo tamaño, con gran componente sólido en su interior que se realzaba a la administración de contraste, compatible con cistoadenocarcinoma, no describiéndose adenopatías (fig. 2). Se solicitaron marcadores tumorales (Ca-125, Ca 19.9, CEA y proteína HE-4), que resultaron negativos y en el algoritmo de riesgo de malignidad ovárica (ROMA)⁵ se obtuvo un bajo riesgo para adenocarcinoma, del 17,91% (<25%). Ante estos hallazgos se propuso la realización de una laparotomía exploradora, en la que se objetivó un útero con múltiples miomas subserosos y una tumoración quística dependiente del anejo izquierdo, adherida a asas intestinales, de 15 cm. Se realizó un lavado peritoneal, anexectomía bilateral y toma de muestras de epiplón, siguiendo el protocolo de estadificación quirúrgica del centro. La biopsia intraoperatoria tuvo como resultado: tumoración mesenguimal benigna a filiar. La paciente presentó un postoperatorio favorable, con un estudio histológico definitivo que describió una pieza de salpingooforectomía izquierda de $1.075 \,\mathrm{g}$ y $14 \times 11 \times 10 \,\mathrm{cm}$, objetivándose un leiomioma ovárico primario, con inmunohistoquímica positiva para actina del músculo liso (AML), desmina, caldesmón, receptores de estrógenos-progesterona positivos y marcadores CD10 y CD34 negativos (fig. 3). El ovario derecho, el lavado peritoneal y las biopsias de epiplón no objetivaron células neoplásicas.

Discusión

El leiomioma primario de ovario aparece con mayor frecuencia en mujeres dentro de la edad reproductiva⁶. Sin embargo, nuestra paciente fue diagnosticada de forma atípica, durante la posmenopausia, en el contexto de un estudio por un cuadro de dolor abdominal. Su etiopatogenia aún genera confusión, basándose fundamentalmente en la teoría del origen en las células musculares lisas de los vasos sanguíneos ováricos. Otras teorías apoyan su origen a partir de las células del ligamento ovárico, del estroma ovárico o por metaplasia cortical del músculo liso⁷. Los estudios de imagen complementarios no consiguen proporcionar un correcto diagnóstico diferencial². La ecografía suele mostrar una masa sólida de ecogenicidad similar al miometrio, que imposibilita distinguirlo de otros tumores anexiales o de miomas pediculados. Por otro lado, la RMN permite ampliar el estudio diferencial³, dado que los fibromas y los tecomas captan una señal de baja intensidad en fase T2WI, que corresponden a cambios quísticos, similar al tumor ovárico de Brenner. En mujeres posmenopáusicas, como en el caso que se expone, las lesiones quísticas de gran tamaño



Figura 1 Ecografía de abdomen y pelvis en la que se observa una masa sólido-quística de $13 \times 9,5 \times 12$ cm, de contornos bien definidos y ecogenicidad heterogénea.

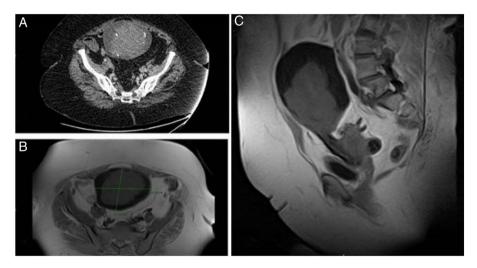


Figura 2 TAC abdominopélvico (A): masa pélvica anexial izquierda quística con polo sólido. RM abdominopélvica (B y C): tumoración de anejo izquierdo con gran componente sólido en su interior, que se realza tras la administración de contraste.

suelen corresponderse con adenomas serosos o mucinosos que, al contrario que los leiomiomas primarios de ovario, no muestran señal de baja intensidad en T2WI². El diagnóstico diferencial del leiomioma ovárico incluye un amplio espectro de tumoraciones ováricas que cursan con un cuadro clínico similar como el fibroma ovárico, el tecoma, el fibroma celular y el tumor estromal esclerosante⁸. Entre estas posibilidades, debemos considerar la leiomiomatosis metastásica benigna, una enfermedad infrecuente en la que se produce una diseminación hematógena de las células miometriales, siendo el pulmón el órgano más frecuentemente afectado9. El diagnóstico de confirmación de los leiomiomas primarios es el estudio anatomopatológico e inmunohistoquímico de la pieza quirúrgica. Aunque, en la mayoría de la evidencia publicada se tratan de tumores benignos, sin atipia, se han reportado casos de formas atípicas e incluso neoplásicas, como el leiomiosarcoma4. Se requiere la confirmación del componente de músculo liso, siendo de gran importancia la tinción tricrómica de Masson, que ayuda a distinguir los componentes muscular y fibroso de la lesión⁷. Además, se realiza un estudio inmunohistoguímico de la pieza, siendo propia de los leiomiomas la positividad de al menos dos marcadores de diferenciación del músculo liso, como la actina, desmina, h-caldesmón e histona deacetilasa (HDCA8), siendo h-caldesmón el antígeno más específico para distinguir la diferenciación muscular, aunque menos sensible que la tinción difusa para desmina¹⁰. En el caso de nuestra paciente, los marcadores caldesmón y desmina fueron positivos, apoyando así el diagnóstico de leiomioma primario. Por el contrario, los marcadores CD10 y CD34 fueron negativos. El antígeno CD10 suele ser positivo en las células estromales, aunque no es específico, y se puede detectar también en tumores musculares¹¹, mientras que el CD34 es un marcador de células endoteliales útil en tumores vasculares y

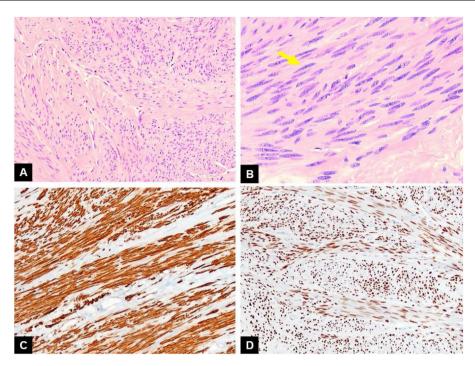


Figura 3 Estudio anatomopatológico: Leiomioma ovárico. A) A poco aumento, vemos un tumor formado por una intersección de fascículos, compuesto por células con cierta tendencia a la formación de «empalizada nuclear» y con áreas fibrosas, sin observarse zonas de necrosis ni hemorragia (HE, $10\times$). B) A mayor aumento, observamos con detalle las características de la población celular: células fusiformes con citoplasma eosinófilo, núcleos en «forma de cigarro» (flecha) con cromatina fina y pequeño nucléolo sin atipia. Además, no observamos figuras de mitosis (HE, $20\times$). C) Expresión intensa y generalizada para desmina, marcador de músculo liso (desmina, $10\times$). D) Por último, en esta imagen observamos expresión intensa y generalizada de receptores de estrógenos (RE) (RE, $10\times$).

de partes blandas. Además, se utiliza para la valoración de la microvascularización propia de la angiogénesis en el desarrollo de lesiones neoplásicas, por lo que suele ser negativo en tumores benignos¹². En las formas malignas como los leiomiosarcomas, también se expresa positividad frente a marcadores de músculo liso como desmina, h-caldesmón y actina de músculo liso. Suelen ser positivos a CD10, citoqueratinas y EMA (antígeno epitelial de membrana, característico de la variante epitelioide)¹⁰, valorando otros criterios como el recuento mitótico, la atipia celular o la necrosis tumoral⁷.

El tratamiento del leiomioma primario de ovario está asociado a la edad. En mujeres posmenopáusicas, como en el caso de nuestra paciente, la salpingooforectomía bilateral es el tratamiento de elección. Sin embargo, en aquellas pacientes que se encuentran en edad fértil, sería posible plantear una cirugía conservadora del ovario, como en el caso descrito por Wei et al., en el que se optó por este tipo de procedimiento, al tratarse de una paciente de 13 años y con un tumor pediculado¹³.

Conclusiones

El leiomioma ovárico es un tumor poco frecuente, generalmente benigno, que suele aparecer en la edad reproductiva, aunque se han descrito casos de diagnóstico en la posmenopausia, por lo que debe incluirse en el diagnóstico diferencial de los tumores anexiales en estas pacientes. El tratamiento de elección es la salpingooforectomía, pues es esencial su análisis anatomopatológico e inmunohistoquímico para la confirmación del diagnóstico y su distinción de las formas malignas.

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.

Financiación

Los autores declaran no tener financiación.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Taskin MI, Ozturk E, Yildirim F, Ozdemir N, Inceboz U. Primary ovarian leiomyoma: A case report. Int J Surg Case Rep. 2014;5:665-8, http://dx.doi.org/10.1016/j.ijscr.2014.07.020.
- Asada T, Yamada T, Kumano R. Primary ovarian leiomyoma with predominant cystic change. Radiol Case Rep. 2019;11:1315-9, http://dx.doi.org/10.1016/j.radcr.2019.08.012.
- Sanverdi I, Vural F, Temizkan O, Temel O, Ayvaci H, Gunes P. Primary ovarian leiomyoma in a postmenopausal woman: A case report. North Clin Istanb. 2016;3:222-4, http://dx.doi.org/10.14744/nci.2015.07379.
- Wang OM, Zhao Y, Ying M, Yao LT, Han X. One case report of giant atypical leiomyoma of the ovary. Medicine (Baltimore). 2018;97:e12526, http://dx.doi.org/10.1097/MD.0000000000012526.
- Hidalgo Mata JJ, Rmas Llop N, Ros Bernal F, Alcázar Zambrano JL. Sistemas de clasificación y predicción de riesgo de malignidad de las lesiones anexiales. Clín Invest Gin Obst. 2018;45:24–31, http://dx.doi.org/10.1016/j.gine.2017.03.005.
- Kelekci S, Eris S, Demirel E, Aydogmus S, Ekinci N. Lipoleiomyoma of the uterus and primary ovarian leiomyoma in a postmenopausal woman: two rare entities in the same individual. Case Rep Pathol. 2015;2015:564846, http://dx.doi.org/10.1155/2015/564846.

- Sasikala R, Rupavani K, Rekha R, Ivan EA. Postmenopausal huge ovarian leiomyoma: a rare presentation. J Clin Diagn Res. 2014;11:OD03-4, http://dx.doi.org/10.7860/JCDR/2014/10369.5204.
- Kim M. Laparoscopic management of a twisted ovarian leiomyoma in a woman with 10 weeks' gestation: Case report and literature review. Medicine (Baltimore). 2016;95:e5319, http://dx.doi.org/10.1097/MD.0000000000005319.
- Aka N, Can R, Köse G, Kaban I. Benign pulmonary metastasizing leiomyoma of the uterus. J Clin Diagn Res. 2016;10:QD01-3, http://dx.doi.org/10.7860/JCDR/2016/17888.8432.
- D'Angelo E, Prat J. Diagnostic use of immunohistochemistry in uterine mesenchymal tumors. Semin Diagn Pathol. 2014;31:216–22, http://dx.doi.org/10.1053/j.semdp.2014.03.003.
- Zhu XQ, Shi YF, Cheng XD, Zhao CL. Immunohistochemical markers in differential diagnosis of endometrial stromal sarcoma and cellular leiomyoma. Gynecol Oncol. 2004;92:71-9, http://dx.doi.org/10.1016/j.ygyno.2003.08.038.
- Rabban JT, Soslow R, Zaloudek C. Chapter 18. Inmunohistology of the female genital tract. En: Dabbs DJ, editor. Diagnostic immunohistochemistry. 3rd ed Philadelphia: Saunders; 2010. p. 690–762.
- 13. Wei C, Lilic N, Shorter N, Garrow E. Primary ovarian leiomyoma: a rare cause of ovarian tumor in adolescence. J Pediatr Adolesc Gynecol. 2008;21:33-6, http://dx.doi.org/10.1016/j.jpag.2007.07.001.