



Caso clínico

Leiomioma del borde lateral de la lengua: reporte de un caso

José Martín Toranzo Fernández^{a,*}, Rodolfo Colunga^b y Laura Gabriela González Valdez^c

^a Departamento de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Central «Dr. Ignacio Morones Prieto», San Luís Potosí, México

^b Departamento de Oncocirugía, Hospital Central «Dr. Ignacio Morones Prieto», San Luís Potosí, México

^c Departamento de Cirugía Maxilofacial, Hospital Central «Dr. Ignacio Morones Prieto», San Luís Potosí, México

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 30 de diciembre de 2010

Aceptado el 27 de marzo de 2012

On-line el 10 de mayo de 2013

Palabras clave:

Leiomioma

Sarcoma

Lengua

Cavidad oral

Keywords:

Leiomyosarcoma

Sarcoma

Tongue

Oral cavity

R E S U M E N

El leiomioma es una neoplasia maligna poco común que se localiza con más frecuencia en el tracto gastrointestinal y genitourinario femenino; su presentación en cabeza y cuello principalmente en la cavidad oral es muy rara. A continuación se realiza la descripción de un caso clínico de una presentación inusual de un leiomioma primario en borde lateral de la lengua, aportando así, un caso más a los reportes aislados de estas lesiones en cabeza y cuello ya descritos en la literatura.

© 2010 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Reporte de un caso leiomyosarcoma of the lateral border of the tongue: report of a case

A B S T R A C T

Leiomyosarcoma is an uncommon malignancy that is most commonly located in the gastrointestinal tract and female genitourinary tract. Its head and neck presentation mainly in the oral cavity is very rare. The following is a description of a clinical case of an unusual presentation of primary leiomyosarcoma of the lateral border of the tongue, bringing one more case to the isolated reports of these lesions of the head and neck as described in the literature.

© 2010 SECOM. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

El leiomioma es un tumor mesenquimatoso que afecta el músculo liso, su presentación es variable y en general va

desde 1 a un 20% de todos los sarcomas y representan menos del 1% de totalidad de las neoplasias malignas¹. Los leiomiomas de cabeza y cuello representan de un 3 a un 10%¹. Intraoralmente son poco frecuentes, el maxilar y mandíbula son los sitios más frecuentes de leiomioma representando

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: dr.martin.toranzo@hotmail.com (J.M. Toranzo Fernández).

1130-0558/\$ – see front matter © 2010 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

<http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2012.03.003>

un 70% del total de las lesiones intraorales², otras localizaciones de menos incidencia incluye lengua, paladar duro y blando, mucosa bucal, encía y labio superior. Se puede presentar a cualquier edad, pero es más común en adultos mayores y se ha reportado predilección por el sexo masculino. Es un tumor muy agresivo, el tratamiento es la resección quirúrgica con márgenes amplios más de 1 cm; la sobrevida a 5 años varía de un 60 a 70%, el tratamiento con quimioterapia y radioterapia para los leiomiomas de cabeza y cuello² ofrecen resultados muy pobres.

A continuación se describe un caso clínico de leiomioma de lengua poco común, de gran tamaño y de aspecto clínico de hiperplasia epitelial inflamatoria más que de una neoplasia verdadera tratado mediante cirugía bajo anestesia general. Con esto se pretende aportar un caso más a los reportes aislados de estas lesiones en cabeza y cuello ya descritos en la literatura.

Caso clínico

Se trata de una mujer de 73 años, con antecedentes de hipertensión arterial sistémica actualmente con control médico, quien acude a valoración por presentar aumento de volumen en la cara ventral y borde lateral izquierdo de la lengua, de 6 meses de evolución, exofítico, de aspecto granulomatoso, fácilmente sangrante, que dificulta considerablemente la deglución y el habla, de crecimiento aparentemente rápido, con medidas de 5 × 3 cm, de coloración violácea, con zonas eritematosas, de color rojo intenso brillante, adherido a la superficie lingual por un pedículo de 1 cm, refiriendo sangrados espontáneos y controlables con presión simple, sin linfadenopatía regional palpable y con edentulismo total adquirido (fig. 1). Se obtienen exámenes de laboratorio de rutina, así como una tomografía axial computarizada de tórax y abdomen donde se descartan lesiones y metástasis a distancia.

Se realiza biopsia incisional bajo anestesia local cuyo estudio reporta diagnóstico de leiomioma. En un segundo tiempo quirúrgico, se realiza resección de la lesión con márgenes de seguridad amplios (fig. 2) y se realiza plastia lingual y cierre primario del defecto. La pieza quirúrgica es enviada para valoración histológica e inmunohistoquímica (figs. 3-5) siendo confirmado el diagnóstico de leiomioma de bajo grado con márgenes libres de neoplasia. El estudio histopatológico mostró una alta cantidad de células espinosas y de músculo liso, así como inmunorreactividad para vimentina y actina alfa músculo liso, negativo para panqueratina, así como para desmina y CD34.

La paciente cursó un postoperatorio inmediato favorable siendo dada de alta hospitalaria al 5.º día de internamiento para continuar con manejo ambulatorio. A un año de postoperatorio la paciente continúa con una adecuada evolución, alimentándose de manera adecuada, sin problemas de fonación después de una intensiva terapia de lenguaje; no hay datos de metástasis corroborados con TAC de control. (fig. 6)

Discusión

Los leiomiomas son neoplasias malignas raras del músculo liso; se clasifican en 3 grupos anatómicos: de tejido



Figura 1 - Aumento de volumen lingual exofítico.

blando, cutáneos y vasculares³; otra clasificación los divide en centrales cuando se originan en el hueso y en periféricos cuando solo involucran tejido blando⁴. Los más comunes se presentan en el tracto gastrointestinal y tracto genitourinario femenino, tan solo un 3 a 10% se presentan en el área de cabeza y cuello incluyendo la presentación intraoral^{1,3}.

La etiología de los leiomiomas es desconocida, sin embargo algunos casos se han asociado a trauma, estimulación osteogénica, radiación ionizante y virus del Epstein-Barr⁵. También se ha reportado que los sarcomas, incluyendo el leiomioma, se pueden desarrollar después de 10 a 15



Figura 2 - Imagen clínica de la totalidad de la lesión con superficie sangrante.

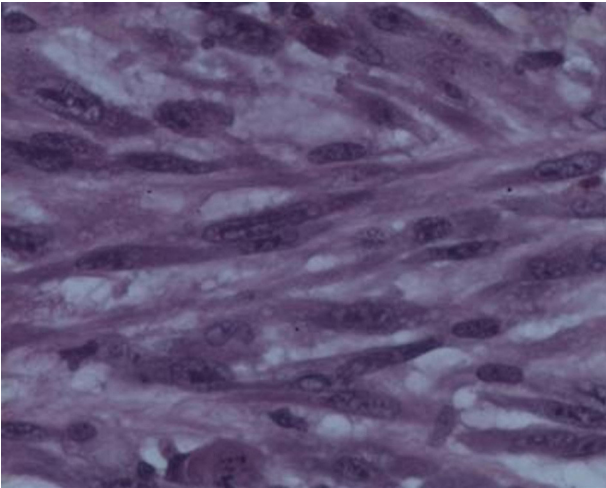


Figura 3 - Histopatología muestra células espinosas y músculo liso.

años de haber recibido radioterapia³. Los leiomiomas que se presentan en la cavidad oral donde la cantidad de músculo liso es escasa, se derivan de la túnica media de los vasos sanguíneos, de células mesenquimales indiferenciadas pluripotenciales o partir de las papilas circunvaladas. También es recomendable descartar la posibilidad de un leiomioma metastasizante a la cavidad oral de otra lesión primaria distante^{2,4}.

Clínicamente el leiomioma se presenta como una lesión bien circunscrita, de crecimiento muy rápido, generalmente asintomático, firme y adherido a los tejidos subyacentes, con cierto grado de ulceración en su superficie; se puede presentar a cualquier edad desde la infancia hasta la senectud, sin predilección por género^{4,6}. Sin embargo, Yan et al., en un estudio de 20 casos reportan que se presentan entre la segunda y quinta década de la vida, con una edad media de 37 años y un ratio hombre mujer de 11:9 y una localización más común en la mandíbula⁷. Los hallazgos clínicos del tumor pueden ser inconstantes, el diagnóstico definitivo se realiza según los hallazgos histopatológicos e

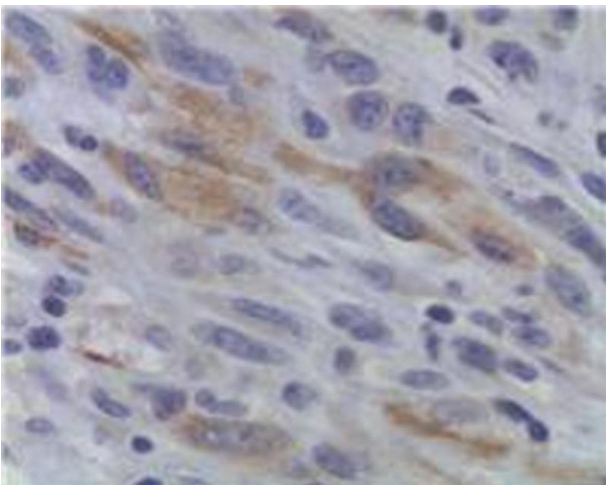


Figura 4 - Inmunorreactividad para actina alfa músculo liso.



Figura 5 - Pieza quirúrgica reseca.

inmunohistológicos. La histopatología característica consiste en fascículos de células espinosas con abundante citoplasma eosinofílico, en ocasiones puede haber células epiteloides con citoplasma claro o eosinofílico; el grado de pleomorfismo es variable considerándose maligno a partir de 5 mitosis por campo. La inmunorreactividad es positiva para actina músculo liso alfa, vimentina y desmina^{8,9}.

El leiomioma es un tumor muy agresivo que generalmente invade los tejidos adyacentes y se disemina por vía hematogena dando metástasis a pulmón e hígado en un 30 a 40% de los casos, las metástasis ganglionares en fases tempranas se presentan en un 9,6 a 22,5%, por lo que el vaciado ganglionar se recomienda solo en casos de ganglios positivos^{5,10}.

El tratamiento de elección es la resección quirúrgica amplia, con márgenes de al menos de 1 cm, el leiomioma es poco sensible a la radioterapia y menos eficaz a quimioterapia por lo que solo se recomienda en casos de sarcomas de alto grado, en tumores sin posibilidad de resección o en casos de márgenes quirúrgicos positivos; la quimioterapia puede ser un recurso sugerido como paliativo en casos de metástasis o tumores sin posibilidad de resección amplia^{9,10}. A pesar de ser una lesión agresiva el pronóstico es bueno si la resección permite la remoción total con márgenes negativos; a 5 años el riesgo de recidiva es del 23%, mientras que el

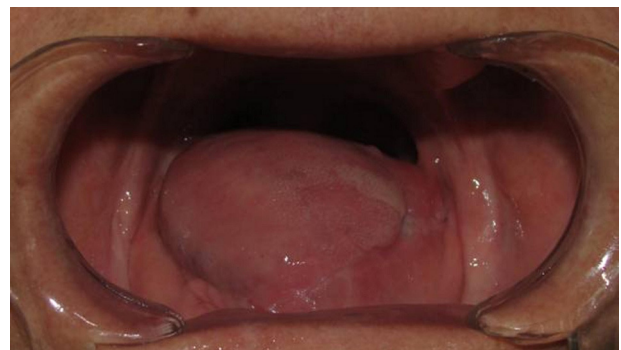


Figura 6 - Control postoperatorio a los 6 meses de postoperatorio.

Tabla 1 – Resumen de los leiomiomas primarios localizados en lengua reportados en la literatura

Estudio	Año	Género	Edad (años)	Localización	Metástasis	Tratamiento	Seguimiento (meses)	Evolución
Caso actual	2012	F	73	Borde lateral de lengua	No	Escisión	12	SEE
Ahn et al.	2011	F	54	Borde lateral de lengua	Si	QT paliativa	1	NR
Pires et al.	2010	M	55	Borde lateral de lengua	No	Escisión	48	NR
Crossman et al.	2008	F	46	Borde lateral de lengua	No	Escisión	60	NR
Yang et al.	2006	F	57	Borde lateral de lengua	No	Escisión, disección de cuello suprahomohioidea	36	NR
Yang et al.	2006	F	54	Punta de lengua	No	Escisión	12	NR
Kazemian et al.	2005	M	32	Borde lateral de lengua	Si	Escisión, DRC modificada, QT	1,5 años	MPE
Sakamoto et al.	2005	M	67	Punta de lengua	No	Escisión	NR	NR
Lo Muzio et al.	2000	M	67	Borde lateral de lengua	No	Escisión	60	NR
Gorsky y Epstein	1998	M	57	Borde lateral de lengua	No	Escisión, QT	48	MPE
Tandon y et al.	1996	M	22	Base de lengua	No	Escisión	60	NR
Piatelli y Artese	1995	F	80	Borde lateral de lengua	No	Paciente rechazó de tratamiento	IND	NR
Aydin y Dreyer	1994	M	70	Base y dorso de lengua	No	RT	1,5 años	NR
Mayall y et al.	1994	M	60	Punta de lengua	No	Escisión	12	NR
Lack	1986	M	2.5	Base de lengua	No	Escisión, QT	4 años	NR
Goldberg y et al.	1970	M	54	Sublingual	No	Escisión	1,5 años	NR
O'Day y et al.	1964	M	3	Sublingual	Si	Escisión	2 años	MPE
O'Day y cols	1964	F	19	Sublingual	Si	Escisión, disección de cuello	11 años	NR
Yannopoulos y Stout meses	1962	M	11	Punta de lengua	No	Escisión	6 años	NR

DRC: disección radical de cuello; F: femenino; M: masculino; SEE: sin evidencia de enfermedad; MPE: muerto por la enfermedad; NR: no reportado; QT: quimioterapia; RT: radioterapia.

porcentaje de metástasis ganglionares y a pulmón e hígado es del 40% y el índice de supervivencia es del 62%^{6,11}. En comparativa, Yan et al. reportan un alto índice de recurrencia y una sobrevida a 2 años del 17,6%⁷. Cabe destacar que en la literatura se han reportado 91 casos^{4,7,8,12-14} de leiomyosarcomas primarios en cavidad oral, de los cuales 19 incluyendo el caso actual, se localizaron en lengua (tabla 1)^{12,14}. El presente caso es de interés por la localización, el tamaño de la lesión, el aspecto clínico diferente a la mayoría de los leiomyosarcomas, al tiempo de evolución y el comportamiento clínico, es importante señalar que en el caso aquí descrito nunca hubo evidencia de metástasis a distancia, por lo que el resultado a un año de postoperatorio se ha comportado hasta hoy de manera favorable, consideramos que la lengua es de los sitios de menor incidencia de leiomyosarcoma y que diagnosticado a tiempo puede ser tratado satisfactoriamente por medio de cirugía.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

BIBLIOGRAFÍA

1. Pires CA, Pires LF, Faber PA. A primary leiomyosarcoma of the lateral border of the tongue. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2010;109:e31-3.
2. Oliveira Rodini C, Correa Pontes FS, Rebelo Pontes HA, Da Silva Santos PS, Gallottini Magalhães M, Santos Pinto D. Oral leiomyosarcomas: report of two cases with immunohistochemical profile. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2007;104:e50-5.
3. Sedghizadeh PP, Angiero F, Allen CM, Kalmar JR, Rawal Y, Albright EA. Post-irradiation leiomyosarcoma of the maxilla: Report of a case in a patient with prior radiation treatment for retinoblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004;97:726-31.
4. Carter LC, Aguirre A, Boyd B, DeLacure MD. Primary leiomyosarcoma of the mandible in a 7 year old girl. Report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1999;87:477-84.
5. Yang SW, Chen TM, Tsai CY, Lin CY. A peculiar site of leiomyosarcoma: the tongue tip-report of a case. *IJ Oral Maxillofac Surg.* 2006;35:469-71.
6. Crossman T, Ward P, Herold J. Leiomyosarcoma of the tongue: a case report. *Br J Oral Surg.* 2008;46:e69-70.
7. Yan B, Li Y, Pan J, Xia H, Li LJ. Primary oral leiomyosarcoma: a retrospective clinical analysis of 20 cases. *Oral Diseases.* 2010;16:198-203.
8. Wada S, Yue L, Furata I, Takazakura T. Leiomyosarcoma in the maxilla: A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2002;31:210-21.
9. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral and maxillofacial surgery.* Third Edition 2009. Pg 559.
10. Perez Villa J, Muntane MJ, Del Prado Venegas M, Viladot J. Leiomyosarcoma de laringe. A propósito de un nuevo caso. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2001;52:254-7.
11. Bucci T, Longo F, Mangone GM, Errico ME, Califano L. Leiomyosarcoma of the submandibular gland. Report of a case and review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2005;34:690-2.
12. Ahn JH, Mirza T, Ameerally P. Leiomyosarcoma of the tongue with multiple metastases: A case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2011. Article in press.
13. Alves Mesquita R, Migliari DA, Machado de Sousa SO, Rodrigues Alves M. Leiomyosarcoma of the buccal mucosa: A case report. *J Oral Maxillofac Surg.* 1998;56:504-7.
14. Vilos GA, Rapis AD, Lagogiannis GD, Apostolidis Ch. Leiomyosarcomas of the oral tissues: Clinicopathologic analysis of 50 cases.