

CASOS CLÍNICOS

Tumoración parauterina: leiomioma celular; ¿ureteral?

J. López-Olmos^a, P. Navarro^b y A. Fernández-Rodríguez^c

^aServicio de Ginecología. Hospital Arnau de Vilanova. Valencia. ^bServicio de Anatomía Patológica. Hospital Arnau de Vilanova. Valencia. ^cServicio de Urología. Hospital Arnau de Vilanova. Valencia. España.

SUMMARY

We present the case of a 29 year old woman with a parauterine, paraureteral tumour, whose diagnosis, following resection and anatomopathological diagnosis, was of cellular fibroleiomyoma. It was probably ureteral, however we cannot be sure of its origin. We discuss this fact and conclude that there are cases which are difficult to diagnose with orientative explorations, the final diagnosis being anatomopathological, although this is not always satisfactory academically.

INTRODUCCIÓN

Se habla de leiomioma celular en útero como tumor benigno con aumento de células por unidad de área cuando se compara con el miometrio de alrededor¹. Cuando la celularidad es superior a la del miometrio adyacente y no se aprecian variaciones arquitecturales significativas respecto al leiomioma convencional.

La apariencia macroscópica es algo más carnosa, más blanda y algo menos fasciculada². Con mayor frecuencia hay necrosis y hemorragia. Microscópicamente, no debe haber atipias nucleares y siempre menos de cuatro mitosis por 10 campos de gran aumento. El diagnóstico diferencial debe hacerse con el leiomiosarcoma y el nódulo estromal benigno¹. En la inmunohistoquímica (IHQ) es positivo a desmina y a actina músculo liso.

Los leiomiomas de uréter son tumores raros, localizados en la pared, entre la mucosa, sólo hay unos 150 casos publicados en la literatura. Microscópicamente hay células de músculo liso, con un tumor bien deli-

neado³. El diagnóstico diferencial se hace con los fibromas por IHQ, y con el cáncer ureteral, si hay hematuria y ulceración de la mucosa.

Presentamos un caso de tumoración parauterina que, tras la exéresis, diagnosticó anatomopatológicamente de leiomioma celular, posiblemente ureteral, aunque su origen no es seguro. Discutimos este hecho y repasamos los leiomiomas ureterales.

CASO CLÍNICO

Mujer de 29 años, G2 P1 C1. Menarquia a los 13 años. Fórmula menstrual: 4/20-30; antecedente de polimenorreas. Anticoncepción con contraceptivos hormonales orales. Antecedentes quirúrgicos: hernia inguinal derecha y estrabismo. Prótesis mamarias bilaterales de silicona. Antecedente médico: cólico nefrítico izquierdo en el año 2000. Revisión ginecológica el 11 de junio de 2002, normal, con citología cervicovaginal y ecografía vaginal.

El 25 de junio de 2002 consulta de urgencia por dolor renal y disuria, por lo que se remite a urología, donde se solicitan distintas pruebas.

– Ecografía abdominal (24-7-2002): ureterohidronefrosis izquierda por masa heterogénea de 4 cm de diámetro, que parece extravesical y no corresponde a ovario.

– Tomografía axial computarizada (TAC) (18-9-2002): ureterohidronefrosis izquierda grado II-III (fig. 1). Tumoración de aspecto quístico de pared gruesa y polilobulada, de 4,5 5,5 cm, entre la cara posterior izquierda de la vejiga y la zona anterior del cuerpo uterino (fig. 2). Ligera pérdida de planos grasos del sigma. Se indica practicar enema opaco y/o colonoscopia. No se aprecian adenopatías ni imágenes de metástasis. Posible tumoración anexial.

– Consulta a ginecología (24-9-2002): ecografía vaginal (figs. 3 y 4): útero normal, línea endometrial

Aceptado para su publicación el 30 de mayo de 2003.

Fig. 1. Tomografía axial computarizada (TAC). Ureterohidronefrosis izquierda, grado II-III.

Fig. 2. Tomografía axial computarizada (TAC). Tumoración de aspecto quístico entre la cara posterior de la vejiga y la cara anterior del cuerpo uterino.

(LE): 1,6 mm. Ovarios no visualizables. Masa retrovesical con zonas quísticas de 35,1 – 31 mm. No tiene relación con útero y no parece anexial. Está en relación con el uréter. Quiste de pared de sigma (?).

Colonoscopia (17-10-2002): sigma normal. Exploración imposible de pasar 40 cm, por sigma redundante, seguramente secundario a la extrema delgadez de la paciente.

Enema opaco (8-11-2002): negativo.

Resonancia magnética nuclear (RMN) (8-11-2002): aumento difuso en el tamaño del cuerpo y fundus uterino que se asocia con alteración en la intensidad de la señal, hipodensa en T1. Tumoración redondeada retrovesical adyacente a tercio inferior del cuerpo uterino, sin plano graso de separación con el útero (figs. 5 y 6). Anexos normales. Los hallazgos plantean la coexistencia de foco endometriósico retro-

Fig. 3. Ecografía vaginal. Útero normal y vejiga.

Fig. 4. Ecografía vaginal. Masa retrovesical con zonas quísticas, ¿ureteral?

vesical asociado a adenomiosis uterina. Descartar un proceso neoplásico retrovesical con infiltración uterina queda más allá de las posibilidades de la técnica. No se observan adenopatías en ninguno de los territorios linfáticos incluidos en la exploración. En el resto de las estructuras intra y extraperitoneales no hay alteraciones asociadas.

La paciente presentaba cansancio y pérdida de peso, así como dolor a la micción. Los marcadores tumorales fueron negativos: CEA: 1,2 ng/ml (normal, 0-5) y CA 19-9: 9 U/l (normal, 0-40).

El 18 de noviembre de 2002 se practica intervención quirúrgica. El útero y los ovarios eran normales. Había una tumoración paraureteral izquierda. Se practica disección ureteral izquierda y separación de

Figs. 5 y 6. Resonancia magnética nuclear (RMN). Tumoración retrovesical, ¿endometriosis?

la tumoración, incluyendo parte de vejiga y sección de uréter a nivel intramural. Cateterización del uréter con doble «J». Se diseca la tumoración y se practica ureterocistoneostomía. Se deja un drenaje Jackson-Pratt retroperitoneal, y sonda vesical del n.º 22, durante 2 semanas. El postoperatorio es normal y se da de alta a la paciente al octavo día.

Fig. 7. Anatomía patológica (actina músculo liso, 400). Las células se marcan intensamente y de forma difusa con actina músculo liso.

Fig. 8. Anatomía patológica (hematoxilina-eosina, 200). Haces entrelazados de células fusiformes sin atipia ni mitosis. A la derecha del campo se aprecia una amplia área de necrosis.

El estudio anatomopatológico reveló los siguientes resultados: en el laboratorio se reciben tres fragmentos que macroscópicamente muestran una morfología irregular, con tamaños comprendidos entre los 4,5 y los 1,5 cm. Su coloración era blanco-grisácea y la consistencia con áreas blandas y otras elásticas. Se tomaron múltiples muestras para el estudio histológico.

Microscópicamente, en el estudio histológico destacó la presencia de una proliferación de células fusiformes dispuestas en haces cortos entrelazados, con alta densidad celular y de origen muscular liso, actina músculo liso positiva (fig. 7). El pleomorfismo celular era escaso, no observándose mitosis y sí una discreta presencia de celularidad inflamatoria crónica acompañante (fig. 8). Uno de los fragmentos mostraba una



Fig. 9. Pielografía intravenosa. Postoperatoria 3 meses, normal.

amplia zona de necrosis en continuidad a la tumoración. Junto a la tumoración, también pudieron observarse haces del tejido muscular con características morfológicas normales, y en uno de los fragmentos pudo verse, además, una pequeña porción de epitelio de tipo urotelial, con inflamación y hemorragia que parece corresponder a pared vesical. En otro de los fragmentos existe una amplia zona de necrosis. Resultan negativos para S-100 y citoqueratina. El diagnóstico final es de fragmentos de leiomioma celular.

La paciente se encuentra asintomática en la revisión clínica, y las urografías intravenosas (5-3-2003) son normales (fig. 9).

DISCUSIÓN

Los leiomiomas genitourinarios son raros. Belis et al⁴ presentan 5 casos: uno en la pelvis renal, dos en la vejiga, uno en el cordón espermático y otro en el glándula del pene en un niño de 3 años (primer caso conocido). Los leiomiomas de uréter serían raros, y producirían obstrucción ureteral y ocasional hematuria. Por angiografía son vasculares.

Cussenot et al⁵ presentan 4 casos: tres vesicales y uno de uréter, en un varón de 48 años con antecedente de cólico nefrítico. En las pielografías se vio una laguna de 2 mm en el uréter derecho a 3 cm del meato. En la ureteroscopia se observó un pequeño pólipo, que se confirmó mediante pielografía retrógrada. Se practicó exéresis, y la anatomía patológica (AP) indicó leiomioma ureteral.

Los leiomiomas ureterales (LMU) son excepcionales. Hay igual frecuencia por sexos, y también se dan en niños. Son de desarrollo lento, pero pueden llegar a ser voluminosos. La clínica es según la localización y el tamaño, y producen de irritación vesical a hematuria u obstrucción. El diagnóstico inicial en uréter es de cálculo ureteral. Al ser pequeños, pueden tratarse por vía endoscópica, y de forma conservadora puede realizarse exéresis completa sin resección ureteral.

El diagnóstico de tumor ureteral preoperatorio puede hacerse en 70% de los casos con sedimento urinario, citología, pielografías intravenosas (PIV), pielografías retrógradas (PR) y cistoscopia. La arteriografía, a partir de angiografía aórtica, puede dar el diagnóstico preoperatorio de LMU⁶. Como en el caso de Lambeth y Ranniger, en una mujer de 31 años, con hematuria y fiebre. En la PIV, riñón izquierdo no visualizable; en la cistoscopia, coágulos, y en las PR, oclusión del uréter y uréter proximal distendido. La arteriografía señaló el tumor en L3, con aumento de vasos e irregulares (se sospechó de tumor maligno), irrigado por una rama de la arteria renal. En la laparotomía, se observó tumor de 9 cm en el tercio superior del uréter. Se practicó nefroureterectomía izquierda. En la AP era un LMU.

Kao et al⁷ presentan un LMU en una mujer de 34 años, un caso muy parecido en cuanto a clínica y hallazgos al anterior. Los autores practicaron nefrectomía izquierda y ureterectomía parcial. Era un tumor de uréter de 5 cm, fibroso y de crecimiento polipode intraluminal, extendido en el uréter 9 cm. Microscópicamente estaba infiltrado por células plasmáticas y

linfocitos pequeños. Las células, con núcleos vesiculares y largos, tenían nucléolos, citoplasma granular o fibrilar y eosinofílico, fibras de reticulina y alguna mitosis. Se trataba de un tumor encapsulado, con estroma edematoso. La paciente presentaba inflamación crónica en la mucosa ureteral. El estudio IHQ confirmó el diagnóstico de LMU. Se observó fluorescencia más verde con actomiosina, que identifica el origen de músculo liso.

Puede haber LMU en niños. El primer caso descrito fue un niño de 4 años⁸, con masa abdominal de 10 x 5 cm, disuria y hematuria macroscópica, y dolor en el flanco derecho, sin antecedente de trauma. En la PIV se observaba ectasia pelvicalicial izquierda y gran masa renal derecha. La cistoscopia fue normal, y en las PR, uréter tortuoso hasta la unión ureteropélvica y sin visualización superior por la obstrucción. En la operación, hidronefrosis, se obtuvo un saco de 1,5 l de orina y una masa de 2 x 1,5 x 1 cm distal a la unión ureteropélvica. Los autores practicaron nefrectomía derecha con ureterectomía parcial. La AP informó de LMU.

El tumor de uréter es más frecuente en el lado izquierdo, y en 60-75% de los casos se da en el tercio distal. Produce hematuria en el 75%, dolor en el 60% y masa hidronefrótica en el 45%. El diagnóstico preoperatorio es difícil. En niños o adolescentes se debe procurar un tratamiento conservador. En caso benigno, se debe proceder a ureterotomía más biopsia, y a la excisión del tumor o resección segmentaria.

Abrams et al⁹ presentan 3 casos de hidronefrosis en niños secundarios a lesiones ureterales, una anomalía congénita y dos tumores benignos. Un LMU se halló en un niño de 4 años con masa abdominal derecha. En la PIV se constató el riñón derecho no funcionando. En la PR se observó obstrucción a 15 cm; el uréter derecho era tortuoso y estrecho. En la intervención, se halló el riñón derecho hidronefrótico y un tumor ureteral de 2 cm. Los autores practicaron nefroureterectomía. La AP evidenció LMU y riñón con áreas de pielonefritis.

Sekar et al¹⁰ presentan un caso en una mujer de 35 años con dolor en el flanco derecho durante un año. En la PIV se observó ureterocele derecho más hidronefrosis del uréter. Los autores practicaron ureteroneocistostomía. En la AP se informó de nódulo de LM al final, en la pared hipertrófica del ureterocele. El ureterocele es congénito, y se trata de una dilatación quística de la porción intramural del uréter. El LMU causaría la obstrucción parcial y posiblemente el ureterocele secundario.

Zaitoon presenta otro caso de LMU¹¹, en un varón de 48 años con dolor en el flanco izquierdo de 4 me-

ses de duración. En la PIV se observó un defecto en el uréter distal izquierdo, así como ectasia de uréter y cálices. En la cistoscopia y la PR se observa el defecto. En la intervención se practica ureterostomía, y se evidencia una masa submucosa, dura, fácil de enuclearse, de 2,5 x 2 x 1,5 cm. En la AP se informa de LMU con infarto central.

Yashi et al presentan otro caso de LMU¹² en una mujer de 40 años, con dolor abdominal superior e historia de urolitiasis. En la PIV hallan una obstrucción incompleta de uréter derecho en L3. En la PR observan un defecto de 10 mm de longitud. En la TAC se pone de manifiesto una masa de tejido blando dentro de la luz del uréter derecho. Los autores practican resección ureteral parcial, tras diagnóstico endoscópico ureteral de tumor benigno submucoso y ureteroureterostomía. La AP informa de LMU. Con la IHQ, es positivo a desmina y a actina músculo liso. Con el diagnóstico preoperatorio se debe practicar ureterectomía parcial.

Chicharro Molero et al¹³ presentan un caso de diagnóstico equivocado, que finalmente resulta ser un LM vesical, en una mujer de 42 años, diagnosticada de útero miomatoso y endometriosis ovárica, a la que se le practicó histerectomía total y doble anexectomía. La AP confirmó útero miomatoso y endometriosis ovárica y pélvica de grado III. Con este antecedente, a los 8 meses presenta dolor cólico en la fosa renal derecha. En la PIV se observa dilatación de uréter y sistema pielocalicial derecho, y masa en vejiga en la cara superolateral derecha. En la ecografía se evidencia una masa quística endovesical en la pared posterior de 4 cm.

El diagnóstico inicial era de masa retrovesical endometriósica, causa de uropatía obstructiva derecha. En la cistoscopia se observó compresión extrínseca y la mucosa vesical íntegra. En la TAC se evidencia una masa quística que impronta en la vejiga y comprime el uréter distal derecho. En la intervención, la biopsia peroperatoria fue negativa, y se practicó exéresis del magma fibroso y de la masa subserosa vesical. La AP indicó tejido fibroso con focos de endometriosis. La masa era un LM vesical. El diagnóstico clínico es difícil, las exploraciones son orientativas y el diagnóstico final se lleva a cabo por la AP.

Este caso se saca a colación, porque en el nuestro ocurrió algo semejante. Una mujer de 29 años, con antecedente de cólico nefrítico. Acude por dolor renal y disuria, y en la ecografía abdominal se observa ureterohidronefrosis izquierda por masa heterogénea que parece extravesical y no corresponde al ovario. La TAC no muestra más datos y sugiere tumoración anexial. En la ecografía ginecológica vaginal se observa

una masa quística retrovesical, pero no parece aneural, por lo que sugerimos que se puede tratar de un proceso ureteral o a lo sumo un quiste de sigma. La RMN muestra anexos normales, pero existe sospecha de foco endometriósico.

Parecía un tumor benigno, pero la paciente presentaba cansancio, pérdida de peso y dolor miccional. En la intervención, la tumoración parauterina es paraureteral izquierda. Se practica ureterocistoneostomía. El diagnóstico AP es de LMU celular.

Puesto que se seccionó el uréter en la zona intramural, incluyendo parte vesical, no podemos afirmar que el origen del tumor sea ureteral, ya que también podría ser vesical. En la ecografía ginecológica (fig. 4) da la impresión de ser un tumor paraureteral. El interés del caso radica en que sirve para enseñar que hay casos de diagnóstico difícil, ya que aun apurando todas las técnicas no siempre se consigue un buen resultado académico, aunque clínicamente se resuelva el problema.

RESUMEN

Presentamos un caso de una mujer de 29 años con tumoración parauterina, paraureteral, que tras la exéresis, el diagnóstico anatomopatológico fue de leiomioma celular, posiblemente ureteral, aunque no podemos asegurar su origen. Discutimos este hecho, y concluimos que hay casos de diagnóstico difícil, con exploraciones orientativas, pero diagnóstico final anatomopatológico, aunque no siempre académicamente satisfactorio.

BIBLIOGRAFÍA

1. Anderson MC, Robboy SJ, Russell P. Cellular leiomyoma. Cap. 15. En: Robboy, Anderson, Russell, editors. Pathology of the female reproductive tract. London: Churchill Livingstone, 2002; p. 395.
2. Grases PJ. Patología ginecológica. Bases para el diagnóstico morfológico. Cap 4. Barcelona: Masson, 2003; p. 92-3.
3. Schwarz A. Pathology of the ureter. Cap 5. En: Bergman H, editor. The ureter. 2nd ed. New York: Springer-Verlag, 1981; p. 131.
4. Belis JA, Post GJ, Rochman SC, Milam DF. Genitourinary leiomyomas. Urology 1979;13:424-9.
5. Cussenot O, Teillac P, Billebaud T, Roge Ph, Cortesse A, Le Duc A. Les léiomyomes de la voie excrétrice urinaire. Ann Urol 1989;23:305-8.
6. Lambeth JT, Ranniger K. Angiographic demonstration of a benign tumor of the ureter. Radiology, 1968;91:929-90.
7. Kao VCY, Graff PhW, Rappaport H. Leiomyoma of the ureter. A histologically problematic rare tumor confirmed by immunohistochemical studies. Cancer 1969;24:535-42.
8. Mondschein LJ, Sutton AP, Rothfeld SH. Leiomyoma of the ureter in a child: the first reported case. J Urol 1976; 116:516-8.
9. Abrams HJ, Buchbinder MI, Sutton AP. Benign ureteral lesions. Rare causes of hydronephrosis in children. Urology 1977;9:517-20.
10. Sekar N, Nagrani B, Yadav RVS. Ureterocele with leiomyoma of ureter. Br J Urol 1980;52:400.
11. Zaitoon MM. Leiomyoma of ureter. Urology 1986;28:50-1.
12. Yashi M, Hashimoto S, Muraishi O, Tozuka K, Tokue A. Leiomyoma of the ureter. Urol Int 2000;64:40-2.
13. Chicharro Molero JA, Baena González V, Quiñonero Díaz A, Padilla León M, Allona Moncada A. Leiomioma vesical: un caso de diagnóstico equivoco. Arch Esp Urol 1987;40: 678-80.