



clínica e investigación en ginecología y obstetricia

www.elsevier.es/gine



CASO CLÍNICO

Metaplasia ósea del endometrio: ¿enfermedad rara o infra-diagnosticada? Reporte de caso



E.S. de la Llata^{a,*}, M.R. Moraga Sánchez^a, M. Remezal Solano^b,
C. Bernal Mañas^b e I.O. Carmona Ruiz^c

^a Reproducción Asistida, Clínica Imar, Murcia, España

^b Departamento de Patología, Insermed, Clínica Imar, Murcia, España

^c Departamento Científico, Clínica Imar, Murcia, España

Recibido el 24 de marzo de 2016; aceptado el 3 de junio de 2016

Disponible en Internet el 12 de agosto de 2016

PALABRAS CLAVE

Metaplasia ósea
endometrial;
Osificación
endometrial;
Metaplasia
endometrial;
Infertilidad
secundaria

KEYWORDS

Endometrial osseous
metaplasia;
Endometrial
ossification;
Endometrial
metaplasia;
Secondary infertility

Resumen

Antecedentes: La metaplasia ósea del endometrio es una enfermedad rara, que suele manifestarse como infertilidad secundaria.

Objetivo: Reportar un caso clínico y hacer una revisión de la literatura, sugiriendo una tríada diagnóstica para esta enfermedad.

Caso clínico: Paciente de 40 años de edad, con imagen hiperrefringente en la ecografía, sangrado uterino anormal y calcificaciones en la histeroscopia.

Conclusión: La tríada de infertilidad, antecedente de aborto previo y áreas hiperrefringentes endometriales en la ecografía, debe hacernos sospechar de metaplasia ósea, debiendo realizar histeroscopia diagnóstica y resección del tejido.

© 2016 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Endometrial osseous metaplasia: A rare pathology or just underdiagnosed? Case report

Abstract

Background: Osseous metaplasia of the endometrium is a rare pathology that usually presents with secondary infertility.

Objective: To present a case report and literature review and propose a diagnostic triad for this condition.

Clinic case: A 40-year-old patient who presents with hyperechogenic areas in the ultrasound scan, abnormal uterine bleeding and calcifications in the hysteroscopy.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: administracion@clinicaimar.com (E.S. de la Llata).

Conclusion: The triad of infertility, previous miscarriage and hyperechogenic areas of the endometrium revealed by ultrasound scan is suggestive of osseous metaplasia, for which diagnostic hysteroscopy and tissue resection is indicated.

© 2016 Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

La osificación endometrial o metaplasia ósea es la presencia de hueso en el endometrio¹. Es una condición rara y su incidencia se estima en 0,3 casos por cada 1.000 mujeres^{2,3}, habiéndose publicado alrededor de 100 casos en la literatura^{2,4}.

Aunque se ha descrito como osificación endometrial, hueso ectópico intrauterino y formación heterotópica de hueso intrauterino^{4,5}, el nombre correcto es metaplasia ósea del endometrio².

Los datos clínicos más comunes incluyen infertilidad secundaria, alteraciones menstruales, dolor pélvico, dispareunia y flujo vaginal⁶. La histeroscopia es el método diagnóstico de elección, así como de tratamiento.

Caso clínico

Paciente de 40 años de edad, con historia de infertilidad y sangrado uterino anormal. Antecedente de 2 gestaciones a término finalizadas en parto. Primera gestación obtenida por inseminación intrauterina y segunda posterior a tratamiento de fertilización *in vitro* por factor masculino (astenoteratozoospermia). Fecha del último parto, 25 mayo del 2014, en el cual presentó retención de restos placentarios que fue tratada con misoprostol.

Acude a consulta en enero del 2015 por presentar sangrado intermitente. Por ecografía transvaginal se observa una línea endometrial hiperrefringente, gruesa. Sin más datos en la exploración.

Se realiza histeroscopia encontrando calcificaciones que se resecan con asa bipolar (fig. 1).

Anatomía patológica

El estudio anatomopatológico de la muestra reveló la presencia de una proliferación endometrial benigna de características proliferativas o hiperplasia endometrial simple, sin atipias citoarquitecturales, asociada a focos de calcificación distrófica en relación con una metaplasia ósea madura del tejido endometrial hiperplásico. Por otra parte, se descartó la presencia de restos embrionarios óseos retenidos en la muestra endometrial (figs. 2 y 3).

Discusión

La presencia de hueso en el endometrio se describió por Virchow en 1884⁷, afirmando que la formación de hueso en el

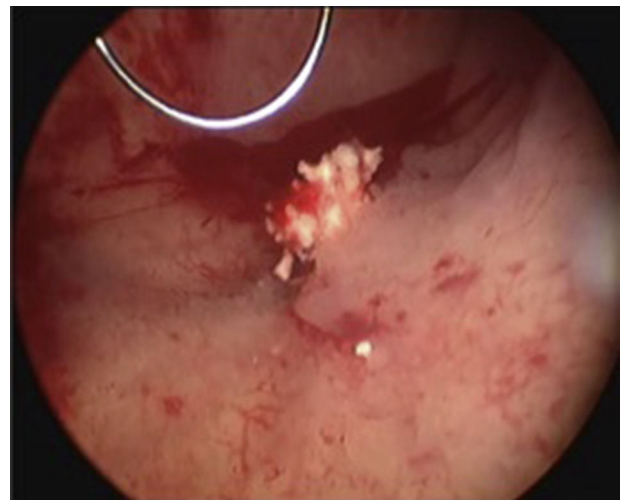


Figura 1 Resección de estructura con calcificaciones en pared posterior de la cavidad endometrial.

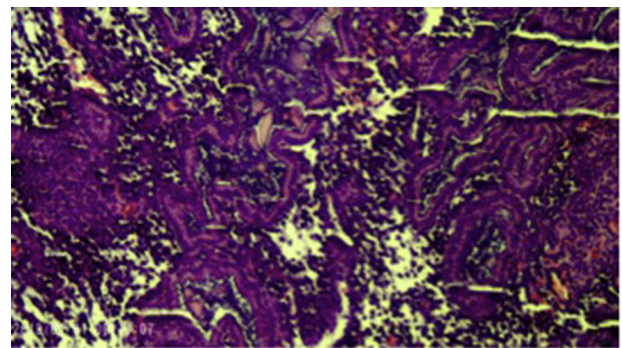


Figura 2 Hiperplasia endometrial asociada al hallazgo de metaplasia ósea.

endometrio se debía a una diferenciación de los fibroblastos hacia osteoblastos. Posteriormente, Mayer en 1901⁶ publica otro caso de tejido óseo en el útero. Thaler, en 1923, lo asoció al antecedente de abortos previos⁶. Se han descrito alrededor de 100 casos en la literatura de esta enfermedad¹.

Las metaplasias del estroma endometrial comprenden la formación de islotes de músculo liso, cartilago o hueso dentro del estroma del endometrio^{2,8}.

La metaplasia ósea se distingue microscópicamente de tejido fetal retenido por la ausencia de una reacción tisular alrededor, y datos de osificación endocondrial³.

Se han propuesto varias teorías sobre el origen de estas estructuras, incluyendo la mutación puntual⁹.

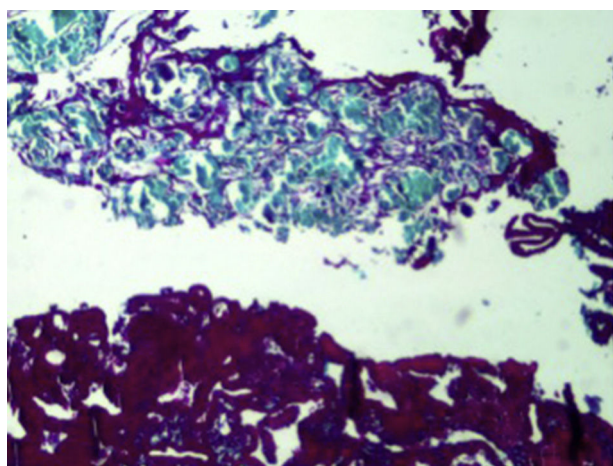


Figura 3 Presencia de tejido óseo maduro calcificado (técnica de Masson $\times 40$).

Una hipótesis es que la metaplasia ósea es el resultado de tejido óseo de un embrión proveniente de un aborto que continúa su desarrollo, aún después de su expulsión espontánea o posterior a un legrado^{4,5,7}. El intervalo entre el antecedente de aborto y la detección de metaplasia ósea varía entre 8 semanas a 15 años. Existen casos de osificación endometrial que ocurren aún sin el antecedente de aborto³. Otra causa pudiera ser la calcificación distrófica de los tejidos retenidos de la concepción, que han producido una inflamación endometrial crónica y conducen a una metaplasia ósea¹⁰.

Otra teoría comprende la presencia de células estromales multipotenciales, usualmente fibroblastos, que se transforman en osteoblastos^{11,12}. Esta transformación puede ser debida a una estimulación estrogénica a largo plazo, inflamación endometrial crónica como endometritis o piodimetria, o alteraciones metabólicas como hipercalcemia e hiperfosfatemia^{3,13}.

Se ha propuesto, además, que la endometritis crónica estimula la liberación de radicales superóxido y factor de necrosis tumoral de las células inflamatorias, llevando a una metaplasia de las células del estroma hacia osteoblastos en mujeres con actividad deficiente de superóxido dismutasa¹⁴.

Por último, hay autores que asocian los antecedentes de un consumo excesivo de calcio y/o vitamina D, alteraciones metabólicas, estimulación estrogénica continua del endometrio y el antecedente de una histerosalpingografía en las pacientes^{3,6,15-18}.

Las manifestaciones clínicas son variables: mujeres asintomáticas, alteraciones menstruales e infertilidad son las 3 principales situaciones que se presentan en esta enfermedad^{5,19}. Otros datos clínicos que pueden presentarse son dolor pélvico y dispareunia⁶.

Frecuentemente aparece en mujeres en edad reproductiva, aunque también se han descrito casos en mujeres menopáusicas. Se menciona que hay el antecedente de un embarazo previo en más del 80% de los casos¹⁹.

El principal ejemplo es una mujer con el antecedente de aborto, que consulta por infertilidad, y en la que se encuentra como hallazgo ecográfico, una pequeña zona hiperrefringente en la cavidad endometrial. A la histeroscopia se observa como un cuerpo óseo, blanco,

incrustado en la mucosa o como una estructura intracavitaria¹.

El diagnóstico se sospecha por ecografía, y se confirma por histeroscopia con toma de biopsia para patología.

En la imagen ecográfica es frecuente visualizar una zona hiperrefringente o bandas hiperecogénicas con sombra acústica que llenan la cavidad³.

El diagnóstico diferencial comprende la presencia de DIU, tuberculosis endometrial, tumor mülleriano mixto maligno y tejido fetal retenido¹.

La técnica de elección tanto para el diagnóstico como el tratamiento es la histeroscopia¹. La resección del tejido por histeroscopia muestra buenos resultados en porcentajes de embarazo y de nacido vivo¹.

Conclusiones

Es probable que el diagnóstico de metaplasia ósea endometrial sea más frecuente de lo informado en la literatura. Sin embargo, debido a que generalmente se presenta después del embarazo, su hallazgo suele ser incidental. No obstante, es una enfermedad en donde el tratamiento muestra buenos resultados para aquellas mujeres donde existe infertilidad y antecedente de aborto.

Aunque la osificación endometrial es una enfermedad benigna con pocas repercusiones clínicas, la tríada de infertilidad, antecedente de aborto previo y áreas hiperrefringentes endometriales en la ecografía, debe hacernos sospechar de metaplasia ósea, debiendo realizar histeroscopia diagnóstica y resección del tejido, con lo que se obtendrán excelentes resultados reproductivos.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Madaan M, Suman S, Sharma R, Kapoor N, Garg P, Raj SS. Osseous metaplasia of the endometrium and successful hysteroscopic resection: A report of two cases and a review of the literature. *Asian J Endosc Surg* 8. 2015:63-6.
2. Patil S, Narchal S, Paricharak D, More S. Endometrial osseous metaplasia: Case report with literature review. *Ann Med Health Sci Res*. 2013;3 Suppl 1:S10-2.
3. Onderoglu LS, Yarali H, Gultekin M, Katlan D. Endometrial osseous metaplasia: An evolving cause of secondary infertility. *Fertil Steril*. 2008;90, 2013.e9-.e201300000011.
4. Cayuela E, Pérez-Medina T, Vilanova J, Alejo M, Cañadas P. True osseous metaplasia of the endometrium: The bone is not from a fetus. *Fertil Steril* 91. 2009, 1293.e1-.e12934.
5. Umashankar T, Patted S, Handigund R. Endometrial osseous metaplasia: Clinicopathological study of a case and literature review. *J Hum Reprod Sci*. 2010;3:102-4.
6. Lainas T, Zorzovilis I, Petsas G, Alexopoulou E, Lainas G, Ioakimidis T. Osseous metaplasia: Case report and review. *Fertil Steril* 82. 2004:1433-5.
7. Virchow R. Ueber metaplasia. *Vichows Arch Abt Pathol Anat*. 1884:410.
8. Rosai J. Uterus-corpus. Rosai and Ackerman's surgical pathology. Volume 2: Elsevier; 2009.

9. Nicolae A, Preda O, Nogales FF. Endometrial metaplasias and reactive changes: A spectrum of altered differentiation. *J Clin Pathol.* 2011;64:97–106.
10. Kumar S, Gupta P, Subbaiah M. Left behind: The patient's secondary infertility was traced to a previous pregnancy. *Am J Obstet Gynecol.* 2010;202:319.e1-2.
11. Bhatia NN, Hoshiko MG. Uterine osseous metaplasia. *Obstet Gynecol.* 1982;60:256–9.
12. Shimizu M, Nakayama M. Endometrial ossification in a postmenopausal woman. *J Clin Pathol.* 1997;50:171–2.
13. Van den Bosch T, van Schoubroeck D, Timmerman D, Deprest J. Uterine intramural bone after mid-trimester termination of pregnancy may not affect fertility: A case report. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2003;22:407–8.
14. Bahceci M, Demirel LC. Osseous metaplasia of the endometrium: A rare cause of infertility and its hysteroscopic management. *Hum Reprod.* 1996;11:2537–9.
15. Marcus SF, Bhattacharya J, Williams G, Brinsden P, Hamou J. Endometrial ossification: A cause of secondary infertility. Report of two cases. *Am J Obstet Gynecol.* 1994;170:1381–3.
16. Zeyneloglu HB, Esinler I, Ozdemir H, Oktem M, Kuscu E. Management of endometrial ossification with office hysteroscopy. *J Obstet Gynaecol.* 2006;26:706–7.
17. Basu M, Mammen C, Owen E. Bony fragments in the uterus: An association with secondary subfertility. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2003;22:402–6.
18. Degani S, Gonen R, de Vries K, Sharf M. Endometrial ossification associated with repeated abortions. *Acta Obstet Gynecol Scand.* 1983;62:281–2.
19. Singh P, Kapur K, Singla S, Naz N. Endometrial osseous metaplasia and mature bone formation with extramedullary hematopoiesis. *J Hum Reprod Sci.* 2011;4:56–7.