

## Sarcoma estromal de bajo grado. A propósito de un caso

C. Mendoza, A.I. Padilla, L. Álvarez, M.C. García-Castro\*, I. Clemente y J. Parache

Departamento de Obstetricia y Ginecología. Hospital Universitario de Canarias. \* Departamento de Anatomía Patológica. Facultad de Medicina. Universidad de La Laguna. España.

### SUMMARY

Se presenta un caso de una mujer de 26 años, a la que se le practicó en dos ocasiones una resección transcervical mediante resectoscopio de formaciones intracavitarias, compatibles con fragmentos endometriales y miometriales con proliferación del estroma. Por lo que se orientó el caso como un tumor estromal de bajo grado. Ante el hallazgo diagnóstico y la agresividad del caso, se decidió realizar una histerectomía, la anatomía patológica fue de sarcoma estromal de bajo grado. Posteriormente se realizó una anexectomía bilateral por laparoscopia.

### INTRODUCCIÓN

El sarcoma de la estroma endometrial (SEE) es un tumor mesenquimatoso de infrecuente aparición. Si bien en el diagnóstico de cáncer de endometrio la histeroscopia ha demostrado su utilidad, no ocurre lo mismo en el diagnóstico de los tumores del estroma endometrial al presentar patrones equiparables a los pólipos y miomas submucosos.

La histerectomía abdominal con anexectomía bilateral constituye el tratamiento indicado, aunque controvertido cuando se trata de pacientes jóvenes y nuligestas.

### CASO CLÍNICO

Mujer de 26 años sin antecedentes medicoquirúrgicos familiares ni personales de interés. Antecedentes ginecoobstétricos: nuligesta; aparición de la menarquia a los 13 años; TM regular hasta unos meses an-

tes de la consulta. Había tomado anticonceptivos hormonales orales monofásicos de baja dosis de los 21 a los 23 años, y nuevamente el mismo preparado en el último año, a pesar de lo cual presentó inicialmente un sangrado irregular y escaso, y posteriormente francas alteraciones de la periodicidad menstrual. En agosto de 1999 en la ecografía transvaginal se observaron imágenes hipoecoicas intrauterinas, objetivándose en la histeroscopia diagnóstica dos formaciones de aspecto polipoide, una en la cara anterior y otra en la cara posterior de la cavidad uterina que impedían la visión del *ostium* tubárico izquierdo, ambas de superficie lisa y vascularización normal, no sospechosas de malignidad, sésiles y con diámetro aproximado de 1-2 cm. Dada la edad y paridad, se consideró lógica la indicación de resección transcervical histeroscópica. Cuatro meses tras el diagnóstico endoscópico, la paciente ingresó de forma urgente refiriendo leucorrea fétida, fiebre de 24 h de evolución y dolor en el hipogastrio. En la exploración con espéculo se objetivó un mioma parido de unos 3 cm de diámetro y aspecto necrótico. Y en la analítica destaca una anemia grave (hematócrito: 22%; hemoglobina: 6,9 g/dl). Se instauró tratamiento antibiótico de amplio espectro por vía intravenosa y a las 72 h se procedió a la resección transcervical de la tumoración descrita. El resultado anatomopatológico fue de: "fragmentos con formación polipoide necrosada y componentes muscular y estromal, compatible con estromomioma más endometrio secretor."

La paciente es dada de alta con feroterapia oral y análogos *depot* de la GnRH (triptorelina 3,75 mg) durante 4 meses, en el curso de los cuales se realizó una ecografía transvaginal de control en la que nuevamente aparece un patrón compatible con poliposis y áreas hipoecoicas corporales. La histeroscopia de control presentaba formaciones de aparente naturaleza mio-

\_\_\_\_\_ Aceptado para su publicación el 30 de agosto de 2001.

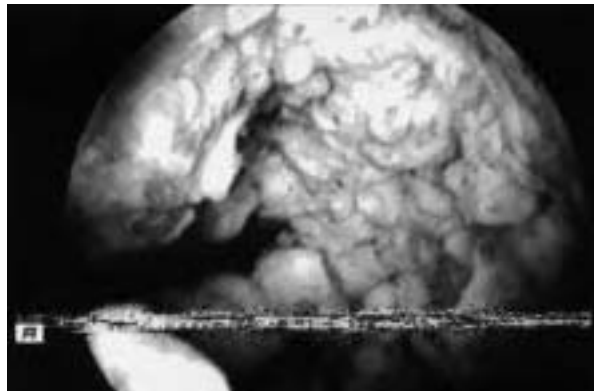


Fig. 1. Imagen histeroscópica tras la resección donde se objetiva las formaciones nodulares intramurales descritas.

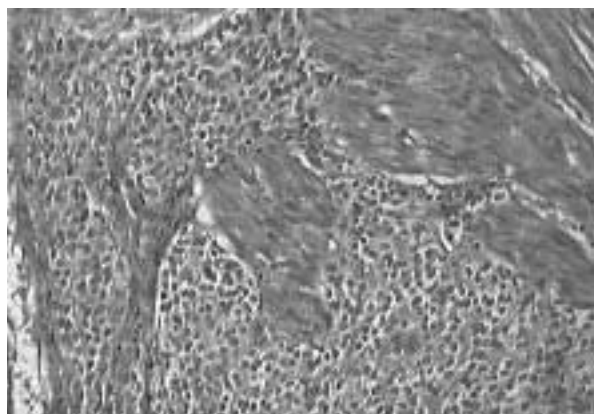


Fig. 2. Aspecto microscópico obtenido de la pieza de histerectomía. Se observan fibras musculares miometriales infiltradas por acumulaciones difusas de células neoplásicas de tipo estromal.

matosa que se localizaban en la misma zona de la lesión anterior, indicándose una nueva resección.

En mayo de 2000 se realizó una resección transcervical mediante resectoscopio de 9 mm de los supuestos miomas submucosos. Extirpadas estas formaciones intracavitarias no aparecían bajo ellas las típicas fibras musculares circulares de la pared miometrial; en cambio, emergían pequeñas formaciones nodulares intramurales en toda la cara anterior y lateral izquierda que le proporcionaban una imagen en “empedrado”. Esta imagen persiste incluso después de realizar cortes seriados con el asa del resectoscopio, por lo que el miometrio parecía afectado en profundidad (fig. 1).

La anatomía patológica en esta ocasión fue de “fragmentos endometriales y miometriales con proliferación del estroma. La conjunción de la presente biopsia con las previas orienta a un tumor estromal

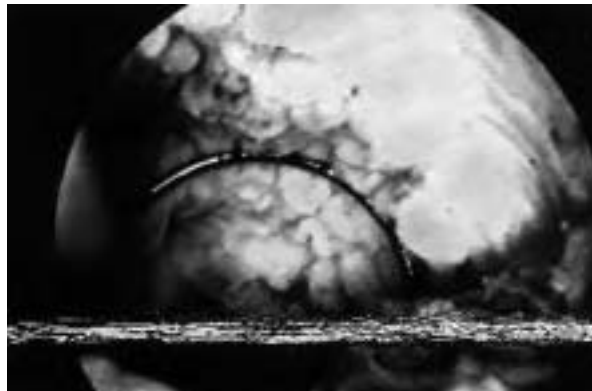


Fig. 3. Imagen histeroscópica: relación del tamaño del asa con las formaciones nodulares intramurales.

con escaso componente mitótico (de bajo grado)”. Ante el hallazgo diagnóstico y la evolución agresiva del caso, se planteó a la paciente y su familia realizar una histerectomía simple (junio de 2000). En el acto quirúrgico el útero se apreciaba macroscópicamente normal, sin nódulos palpables. Ambos ovarios fueron valorados como normales, así como el resto de la pelvis y la cavidad abdominal. La anatomía patológica de la pieza fue de “sarcoma de la estroma endometrial de bajo grado”. Microscópicamente, se puso de manifiesto la proliferación tumoral de estirpe mesenquimatoso en forma de masas, micronódulos o fascículos que se entremezclaban con fibras musculares del miometrio. Las células tumorales son bastante monomorfas, caracterizadas por presentar una morfología redondeada u ovoide, citoplasma pálido o levemente eosinófilo y un núcleo redondeado con micronúcleolos; las figuras de mitosis son relativamente escasas. Periféricamente, se observan avanzadillas del tumor que infiltran el miometrio hasta unos 2 mm de la serosa uterina (fig. 2).

Ante el dictamen histopatológico, y de acuerdo con las corrientes de opinión al respecto<sup>1-3</sup>, se decidió, previo informe y consentimiento de la paciente, la práctica de una anexectomía bilateral por vía laparoscópica. La anatomía patológica de ambos ovarios resultó normal. La paciente se encuentra actualmente asintomática y siguiendo controles periódicos en la policlínica de nuestro hospital.

## DISCUSIÓN

El sarcoma de la estroma endometrial (SEE) es un tumor mesenquimatoso que representa el 0,2% de los cánceres ginecológicos<sup>4</sup>. Fue caracterizado originalmente por Norris y Taylor<sup>5</sup>. Se encuentra incluido den-

tro de los sarcomas uterinos, igualmente raros, representando menos del 10% de éstos. En general, los tumores de la estroma endometrial se dividen en benignos y malignos; los primeros están representados por el nódulo estromal endometrial (estromomioma), y los segundos, por el sarcoma del estroma endometrial de bajo y alto grado. La clasificación en grados de los SEE dependía tradicionalmente del índice mitótico considerándose, en los de bajo grado, inferior a 10 en 10 campos de gran aumento. Este parámetro, junto al estadio quirúrgico, se consideraban los factores pronósticos de mayor significación<sup>5</sup>. Los tumores del estroma endometrial afectan a mujeres más jóvenes que el resto de tumores malignos del cuerpo uterino. Cerca del 50% se presentan en mujeres premenopáusicas.

El motivo de consulta más frecuente suele ser la hemorragia uterina anormal<sup>2,6</sup>, que puede acompañarse de dolor abdominal. De manera ocasional, el tumor puede ser polipoide y protruye a través del orificio cervical<sup>6</sup>.

En lo referente al diagnóstico, la primera prueba a la que recurrimos habitualmente es la ecografía transvaginal, la cual en la mayor parte de los casos nos va dar una imagen sugestiva de poliposis o formaciones miomatosas submucosas, algunas de crecimiento rápido. En nuestro caso, analizándolo de forma retrospectiva, si comparamos el tamaño del asa del resectoscopio con el tamaño de los nódulos intramurales, éstos no debían alcanzar más de 2 o 3 mm, lo que explicaría que no se hayan descrito alteraciones ecográficas en el miometrio (fig. 3). Aun cuando muchas veces pueda resultar anodino, el único parámetro que podría aportar una cierta información adicional en la diferenciación de miomas y sarcomas sería el estudio Doppler-color, tomando como punto de corte el índice de resistencia de 0,40, cuya sensibilidad, especificidad y valores predictivos positivo y negativo son estadísticamente significativos<sup>7</sup>. Debido a las limitaciones del legrado, por las propias características definitorias del tumor, la inclusión de la histeroscopia es preceptiva dentro del protocolo diagnóstico de las metrorragias. Aunque la histeroscopia ha demostrado su utilidad en el diagnóstico de cáncer de endometrio, no ocurre lo mismo en el diagnóstico de los tumores de la estroma endometrial, al no presentar patrones histeroscópicos diferenciables con los pólipos o miomas. Existen escasas referencias en la bibliografía de resección endoscópica inadvertida de este tumor, así como de imágenes endoscópicas como las que aportamos en nuestra descripción<sup>1,2,8</sup>.

La resección de estos tumores, aunque no es concluyente, facilita la sospecha diagnóstica del SEE de bajo grado, pero es el contorno infiltrante lo que lo

define. El diagnóstico final sólo puede hacerse en la pieza de histerectomía tras el examen de los márgenes con el miometrio circundante<sup>8</sup>.

Con respecto al tratamiento definitivo y actual de este infrecuente tumor se acepta la cirugía sin demora tras la intervención conservadora (resección transcervical), mediante histerectomía total y salpingooforectomía bilateral, sin que exista evidencia sobre la conveniencia de muestreo ganglionar. El tratamiento conservador, propuesto por algunos autores<sup>9</sup>, en nuestro caso fue desechado por la evolución agresiva del tumor y la nula respuesta a los 4 meses de tratamiento con análogos de la GnRH, que no impidieron la aparición de nuevas formaciones intracavitarias en la misma zona de la resección anterior. Así, aunque el estudio histopatológico tras la histeroscopia quirúrgica no era definitivo y sólo nos orientaba hacia este diagnóstico, la imagen endoscópica era desalentadora para considerar una futura descendencia, por lo que la histerectomía se encontró justificada, aun siendo una paciente de 26 años nuligesta. La indicación de ovariectomía bilateral fue también controvertida, pero ante la posibilidad de afección anexial, el desconocimiento de la dependencia de hormonas del tumor y el alto porcentaje de recidivas a los 5 años, se tomó la actitud de extirparlos.

La supervivencia de las pacientes con SEE de bajo grado, en general, suele ser pobre. En estadios precoces le corresponde una supervivencia a los 5 años del 50%, alcanzando el 20% los casos de enfermedad avanzada<sup>6,8</sup>. Las recurrencias suelen ser locales pélvicas, y la diseminación hematogena, hasta en un 35% de las pacientes con enfermedad circunscrita al útero<sup>6,8</sup>.

La determinación de receptores hormonales (estrógenos y progesterona) no parece tener, hasta el momento, aplicación en relación con el tratamiento con hormonoterapia adyuvante. En esta paciente fueron positivos ambos. Sin embargo, O'Brien et al, en 1985, publicaron un caso de SEE agresivo con metástasis pulmonares que respondió favorablemente al acetato de medroxiprogesterona después del fallo en el tratamiento con tamoxifeno y una combinación de quimioterapia<sup>10</sup>.

Del mismo modo, existen resultados contradictorios acerca de la respuesta tumoral frente a tratamientos complementarios basados en el uso de radio o quimioterapia<sup>3,10</sup>.

## RESUMEN

We present the case of a 26-year-old woman who on two occasions underwent transcervical resection through resectoscopy of intracavity formations com-

patible with endometrial and myometrial fragments with stromal proliferation. These findings guided the diagnosis of low-grade stromal tumor. Because of the diagnostic finding and the aggressiveness of the tumor, hysterectomy was performed. Histological diagnosis was low-grade stromal tumor. Laparoscopic bilateral annexectomy was subsequently performed.

#### BIBLIOGRAFÍA

1. Marabini A, Gubbini G, De Jaco P et al. A case of unsuspected endometrial stromal sarcoma remove by operative hysteroscopy. *Gynecol Oncol* 1995; 59: 409-411.
2. Flam F, Radestad A. Endometrial stromal sarcoma diagnosed by operative hysteroscopy. *Hum Reprod* 1996; 11: 2797-2798.
3. Berchuck A, Rubin SC, Hoskins WJ et al. Treatment of endometrial stromal tumors. *Gyneco Oncol* 1990; 36: 60-65.
4. Koss LG, Spiro RH, Brunshwig A. Endometrial sarcoma. *Surg Gynecol Obstet* 1965; 121: 531-537.
5. Norris HJ, Taylor HB. Mesenchymal tumors of the uterus. A clinical and pathological study of 53 endometrial stromal tumors. *Cancer* 1966; 19: 755-766.
6. Auciaux D, Laurence WD. Tumores Uterinos Malignos. En: Shingleton HM, editor. *Oncología Ginecológica*. Londres: WB Saunders, 1998; 130-145.
7. Kurjak A, Kupesic S, Shalan H et al. Uterine sarcoma: a report of 10 cases studied by transvaginal color and pulsed doppler sonography. *Gynecol Oncol* 1995; 59: 343-346.
8. Úbeda A, Tresserra F, Grases PJ, Labastida R. Resección histeroscópica de un sarcoma del estroma endometrial insospechado. *Prog Obstet Ginecol* 1997; 40: 509-513.
9. Lissoni A, Cormio G, Perego P et al. Conservative management of endometrial stromal sarcoma in young women. *Int J Gynecol Cancer* 1997; 7: 364-367.
10. O'Brien A, O'Brien S, Daly PA. Aggressive endometrial stromal sarcoma responding to medroxyprogesteron following failure of tamoximen and combination chemotherapy. Case report. *Br J Obstet Gynecol* 1985; 92: 862-866.