

Leiomioma vascular en labio. Revisión de la literatura y presentación de un caso.

Vascular leiomyoma of the lip: A case study and review of the literature

Dr. Ilan Vinitzky Brener

Formación de Residente de Cirugía Oral y Maxilofacial.
Hospital Juárez de México y Universidad Nacional
Autónoma de México.
Profesor de Odontología de la Universidad Tecnológica
UNITEC.
México D.F.

Dr. Carlos J. Liceaga Escalera.

Jefe de Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial.
Hospital Juárez de México.

Dra. Beatriz C. Aldape Barrios.

Patóloga Oral.
Profesora de Patología.
Facultad de Odontología.
Universidad Nacional Autónoma de México UNAM

Recibido en Junio de 2011.

Aceptado para publicación: Agosto de 2011

Resumen

Los leiomiomas son neoplasias benignas derivadas de músculo liso, frecuentes en ciertas partes del cuerpo pero muy raros en cavidad bucal. Se pueden dividir en 3 subtipos: leiomioma sólido, leiomioma vascular y leiomioma epitelioide. Se presentan principalmente entre la 5^a y 6^a década de vida, sin predilección por género o raza. Su localización más frecuente es el labio, aunque pueden encontrarse en otros sitios incluso intraóseos.

Clínicamente se presentan como masas pequeñas (1 a 2 cm), de base sésil, asintomáticas, de crecimiento lento y consistencia firme. El tratamiento de elección es la escisión, presentando una tasa muy baja de recurrencia y un pronóstico excelente. Presentamos el caso de un masculino de 13 años con una lesión en labio la cual fue diagnosticada como leiomioma vascular.

Palabras Clave: Leiomioma vascular en labio, patología bucal, neoplasia benigna bucal.

Abstract

Leiomyomata are benign smooth-muscle neoplasms that are very common in certain parts of the body, though quite rare in the oral cavity. They can be divided into three subtypes: solid leiomyoma, vascular leiomyoma, and epithelioid leiomyoma. They usually appear in the 5th and 6th decade of life, with no greater incidence in either sex or race. They are most commonly found on the lip, though can appear in many other locations, including intraosseously. Clinically they appear as a small (1-2 cm) slow-growing asymptomatic sessile mass with a firm consistency. The treatment of choice is surgical excision, which results in a very low rate of recurrence and excellent prognosis. We present the case of a 13-year-old male patient with a lip lesion diagnosed as vascular leiomyoma.

Key Words: *Vascular leiomyoma of the lip, oral pathology, oral benign neoplasm.*

Introducción

Los leiomiomas se definen como neoplasias benignas derivadas de músculo liso¹. Son considerados la neoplasia benigna más común en el útero y el estómago sin embargo son raros en la cavidad bucal². En una serie de 7748 tumores de músculo liso de diferentes variantes solo 5 (0.06%) fueron encontrados en la boca.³

El primer caso de un leiomioma bucal fue reportado por Blanc en 1884⁴ y existen relativamente pocos casos reportados en la literatura. Los leiomiomas se pueden dividir en 3 subtipos histológicos según la Organización Mundial de la Salud: leiomioma sólido, leiomioma vascular (angioleiomioma) y leiomioma epitelioide (leiomioma bizarro o leiomioblastoma),⁵ siendo el subtipo vascular el más común (aproximadamente 74%), seguido por el subtipo sólido, con el 25% y finalmente el subtipo epitelioide con 1% de todos los casos.^{1,6}

En cavidad bucal el sitio más común de presentación es en los labios (27.46%), seguido por la lengua (18.3%), carrillo y paladar (15.49%), encía (8.45%) y mandíbula (5.63%), aunque también ha sido reportado en piso de boca, glándulas salivales, maxilar y hueso cigomático.^{2,7,8}

Los leiomiomas pueden presentarse en un amplio rango de edad, teniendo una mayor incidencia en la 5ta y 6ta décadas de vida. No hay predilección por género o raza; clínicamente se presentan como masas superficiales, asintomáticas, de crecimiento lento, de consistencia firme y en ocasiones elástica. El tumor no se ulcera y se parece a la mucosa adyacente tanto en color como en textura, sin embargo en algunos casos puede presentar color rojo, azul o púrpura y en la minoría de los casos como blanco-gris. El tamaño varía de pocos milímetros a pocos centímetros (generalmente 1 a 2 cm). Por lo regular es asintomático, aunque algunos autores han reportado casos de lesiones dolorosas.^{9,10} En algunos reportes se menciona que los pacientes notaron variaciones del tamaño de la lesión asociadas a cambios de temperatura, actividad física o ingesta de bebidas alcohólicas,^{5,11} especialmente en el subtipo vascular.

Radiográficamente no hay cambios significativos cuando se presenta en tejidos blandos, sin embargo en su presentación intraósea se manifiesta como una radiolucidez uni o multilocular, pudiendo presentar expansión cortical y

resorción radicular.¹²

El diagnóstico diferencial clínico debe realizarse con otras neoplasias benignas mesenquimatosas como fibroma, lipoma y neurofibroma, lesiones benignas de glándulas salivales como adenoma pleomorfo, el cual también es una lesión poco común en labio sin embargo comparten características clínicas, o mucocele, en cuyo caso es importante interrogar sobre antecedentes traumáticos en el sitio de la lesión.

Deben incluirse en el diagnóstico diferencial lesiones vasculares tales como hemangioma, linfangioma, y granuloma piógeno, sobre todo en aquellas lesiones que presentan coloración rojo-azulada o violácea; en estos casos es importante verificar si la lesión es pulsátil, si cambia de color al presionarla y pudiera ser conveniente solicitar una angiografía para descartarlo. Por último deben considerarse quistes de tejido blando como el quiste dermoide.

Histológicamente la proliferación de células del músculo liso puede confundirse con otras lesiones benignas compuestas primariamente de células en huso como el neurofibroma y el neurilemoma, también deben considerarse otras lesiones como el hemangiopericitoma y el hemangioendotelioma.⁵

El tratamiento de elección de los leiomiomas bucales es la escisión. A pesar de la naturaleza vascular del angioleiomioma, es raro observar sangrado profuso durante el acto quirúrgico¹³. La recurrencia es notablemente rara y hasta la fecha no hay ningún reporte publicado de leiomiomas bucales que sufrieron transformación maligna;^{5,14} en general el pronóstico es excelente.

Reporte del Caso.

Se presenta el caso de un paciente masculino de 13 años de edad, el cual acude al Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Juárez de México por presentar una lesión asintomática en labio inferior. El paciente no manifestó antecedentes médicos de relevancia, refiriendo haber notado un ligero aumento de volumen en labio inferior, de aparición espontánea, sin antecedentes traumáticos en la zona aproximadamente 4 meses previos, el cual aumentó lentamente de tamaño y se mantuvo asintomático. El paciente niega parestesias.

A la exploración física se observa un aumento de volumen en labio inferior que abarca desde la mucosa labial hasta piel adyacente, de aproximadamente 2 cm de diámetro mayor, de

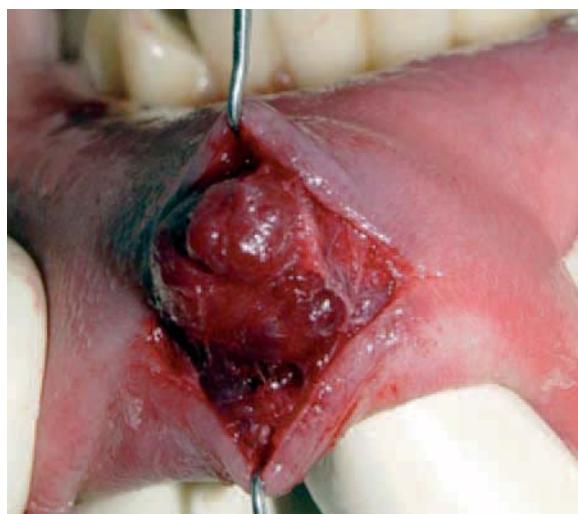
consistencia firme, ligeramente resiliente a la presión, indoloro a la palpación, de color similar a mucosa y piel adyacente con una pequeña zona de color violácea en la región anteroinferior. (Fotografía 1) No se palpan adenomegalias.



Fotografía 1. Aspecto intrabucal de la lesión: Aumento de volumen en mucosa de labio inferior, de aproximadamente 2 cm de diámetro mayor, color similar a mucosa adyacente.

Se solicitan estudios de imagen (Ortopantomografía y radiografía lateral de cráneo) donde no se aprecian alteraciones óseas, únicamente zona ligeramente radiopaca en labio inferior, consistente con tejido blando.

Se procede a realizar biopsia escisional de la lesión mediante abordaje intrabucal, encontrando una masa sólida, firme, bien delimitada, de color rojizo, adherida a planos profundos. (Fotografías 2 y 3).



Fotografía 2. Disección de la lesión: Se realizó abordaje intrabucal observando una lesión firme, sólida de color rojizo.

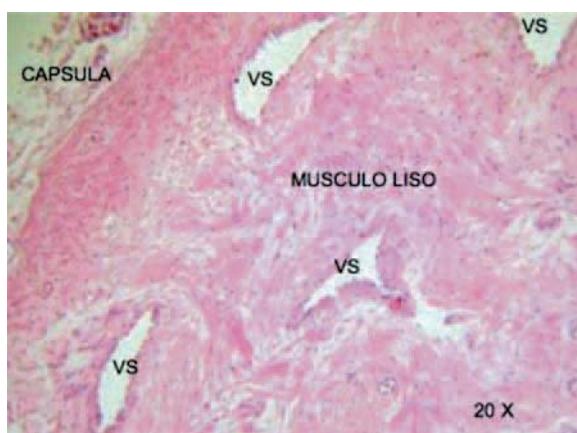


Fotografía 3. Aspecto macroscópico de la lesión: Masa sólida de color rojizo, forma y superficie irregular, de aproximadamente 2 x 1.8 x 0.9 cm.

Se sutura plano mucoso con material reabsorbible y se termina el acto quirúrgico sin complicaciones. Se envía el material para su estudio histopatológico con diagnóstico probable de malformación vascular Vs Adenoma Pleomorfo.

Histopatología

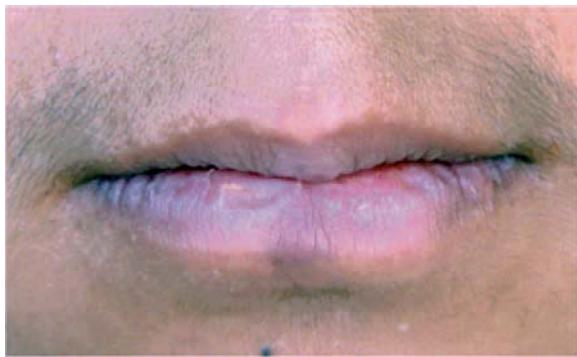
Se recibe espécimen formado por vasos sanguíneos de diferentes calibres, revestidos por endotelio, rodeado de músculo liso, entremezclados con tejido conectivo fibroso denso bien vascularizado, hemorragia reciente, músculo estriado y conductos glandulares estriados. Epitelio escamoso estratificado hiperorthoqueratinizado, folículos pilosos y glándulas sebáceas (Fotografía 4).



Fotografía 4. Histopatología. Corte teñido con hematoxilina-eosina donde se observan múltiples vasos sanguíneos de diferentes calibres (VS) y músculo liso, entremezclados con tejido conectivo fibroso denso.

Diagnóstico: Leiomioma vascular

El paciente acude a controles periódicos, con adecuada cicatrización de la herida quirúrgica y 3 meses después se encuentra asintomático y libre de lesión. (Fotografía 5).



Fotografía 5. Control postoperatorio a los 3 meses observando adecuada cicatrización.

Discusión.

Los leiomiomas son raros en cavidad bucal. Brooks y cols⁵ reportaron únicamente 12 casos entre 76,412 biopsias analizadas entre 1963 y 2001 en un servicio de patología bucal. Esto se explica por la poca cantidad de tejido muscular liso que existe en esta zona.⁹ Varios autores han postulado diferentes teorías en relación con el origen de los leiomiomas en la cavidad bucal; Stout¹⁵ propone que el origen es el músculo liso de la pared de los vasos sanguíneos, específicamente de la túnica media. Otras fuentes que podrían considerarse son las papillas circunvaladas de la lengua, el conducto submandibular y tejido muscular embrionario heterotópico.^{2, 5, 9} Duhig y Ayers¹⁶ sugieren que los leiomiomas vasculares solo representan una etapa en el proceso de proliferación continua del músculo liso y que un gran número de estos pueden ser malformaciones vasculares. La secuencia de progresión que ellos sugieren es hemangioma, angioma, leiomioma vascular, leiomioma y leiomioma sólido.^{2, 16}

De los 3 subtipos conocidos de leiomiomas, sólido, vascular y epitelioide, diferentes estudios demuestran que el subtipo vascular es el más común. Brooks y cols⁵ encontraron que un 92.3% de los tumores benignos de músculo liso en cavidad bucal eran angioleiomiomas. En otro estudio realizado por Baden y cols⁸ de un total de 142 leiomiomas bucales 94 casos correspondieron a la variante vascular.

En cuanto a la edad de presentación de estas lesiones, llama la atención en nuestro caso la corta edad del paciente, ya que si bien es cierto que se han reportado en un amplio rango de edad, la mayoría de los estudios concuerdan en que se presentan de manera predominante en la 5ta y 6ta década de vida;^{2, 5} el resto de

las características (localización, tamaño, forma, consistencia), coincide con lo descrito en la mayoría de los reportes.¹⁻¹⁶

Por la baja incidencia de estas lesiones, cuando llegan a presentarse, los diagnósticos clínicos generalmente van orientados a otro tipo de patologías, como lo son lesiones de tejido conectivo, lesiones de glándulas salivales o malformaciones vasculares. En este caso se sospechaba principalmente de una malformación vascular, sobre todo por la edad del paciente, coloración y consistencia de la lesión.

El leiomioma es una entidad totalmente benigna, sin embargo debe diferenciarse cuidadosamente de su contraparte maligna el leiomiosarcoma, aunque las características histológicas como atipia celular y necrosis pueden proveer indicadores de malignidad, la actividad mitótica representa el criterio más confiable de un comportamiento maligno junto con estudios de inmunohistoquímica y marcadores moleculares.^{5, 17}

La importancia de la evaluación inmunohistoquímica radica en su contribución al diagnóstico diferencial, especialmente para descartar otras neoplasias de tejido blando, principalmente lesiones mesenquimatosas con predominio de células fusiformes. Entre los principales inmunomarcadores que se utilizan se encuentran vimentina, desmina, actina, CD34 y S-100.¹⁸ Inaba y cols refieren que histológicamente puede ser difícil diferenciar entre un leiomioma y un leiomiosarcoma de bajo grado, por lo que recomiendan un seguimiento cuidadoso a largo plazo para todas las neoplasias de músculo liso de la cavidad bucal.¹⁹

Conclusiones

Aunque si bien es cierto y se ha mencionado que la aparición de leiomiomas bucales es rara, es importante tener el conocimiento básico para su adecuado diagnóstico y tratamiento, así como contemplarla como un diagnóstico diferencial probable en casos similares que comparten características clínicas.

Es importante realizar los estudios pertinentes para diferenciar esta lesión de su contraparte maligna y se recomienda en todos los casos un seguimiento estricto y a largo plazo.

Referencias.

1. Anastassov G, van Damme P. Angioleiomyoma of the upper lip: report of a case. *Int. J. Oral Maxillofac. Surg* 1995;24:301-302.
2. Orsini G, Fiorini M, Rubini C, Piatelli, A. Leiomyoma of the Lip: Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 2001;59:80-83.
3. Farman AG. Benign smooth muscle tumour. *S Afr Med J* 1975;49:1330-1340.
4. Blanc E: Travaux originaux. *Gaz Hebd Med Chir* 1884; 21:61
5. Brooks J, Nikitakis N, Goodman, N Levy B. Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2002; 94:221-7
6. Cherrick HM, Dunlap CL, King OH. Leiomyomas of the oral cavity. Review of the literature and clinicopathological study of seven new cases. *Oral Surg* 1973;35:54-66.
7. Baden E, Doyle JL, Lederman DA: Leiomyoma of the oral cavity: A Light microscopic and immunohistochemical study with review of the literature from 1884 to 1992. *Oral Oncol Eur J Cancer* 1994; 30:1.
8. Robinon M, Demitri V, Costa F, Politi M: Zygomatic leiomyoma: Case report. *Minerva Stomatol* 1996;45:593.
9. Leung K, Yong-Kie D, Li W. Oral Leiomyoma: Case Report. *J Oral Maxillofac Surg* 1990;48:735-738.
10. Kelly D, Harrigan W: Leiomyoma of the tongue: Report of a case. *J Oral Surg* 1973;35:316.
11. Rerui T, Takahashi M, Tagami H. Angioleiomyoma of the lip. *Int J Dermatol* 1987; 26; 119-120.
12. Burkes EJ. Vascular leiomyoma of the mandible: Report of a Case. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53:65-66.
13. Svane TJ, Smith BR, COsentino BJ, Cundiff EJ, Cervolo JJ. Oral leiomyomas: Review of the literature and report of a case of palatal angioleiomyoma. *J. Periodontol.* 1986;57:433-435.
14. Natiella JR, Neiders ME, Greene GW. Oral leiomyoma: report of six cases and review of the literature. *J Oral Pathol* 1982;11:353-65.
15. Stout AP: Leiomyoma of the oral cavity. *AM J Cancer* 1938;34:31. Duhig JT, Ayer JP. Vascular leiomyoma: a study of six one cases. *Arch Pathol* 1959;68:424.
16. Nikitakis NG, Lopes MA, Bailey JS, Blanchaert RH, Ord RA, Sauk JJ. Oral Leiomyosarcoma; review of the literature and report of two cases with assessment of the prognostic and diagnostic significance of immunohistochemical and molecular markers. *Oral Oncol* 2001;38:201-8.
17. Gaitan-Cepeda L, Quezada-Rivera D, Tenorio-Rocha F, Leyva-Huerta ER, Mendez-Sánchez E. Vascular leiomyoma of the oral cavity. Clinical, histopathological and immunohistochemical characteristics.Presentation of five cases and review of the literature. *Med Oral Pathol Oral Cir Bucal*. 2008 1:13(8):483-8
18. Inaba H, Ohnishi Y, Inaba M, Niki H, Yamasaki Y, Morita S, Kakudo K Painless mass of the cheek. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2003;95:3-6.

Correspondencia.

Dr. Ilan Vinitzky Brener
Av. Ejercito Nacional No 1112 Interior 1001
Colonia Polanco
Delegación Miguel Hidalgo
C.P 11510 México, D.F.
ilanvinitzky@hotmail.co