



Leiomioma del esófago y su resección endoscópica transhiatal. Informe de un caso

Javier Benítez Beltrán,* José María Zubirán Moreno,** José María Zubirán Rodríguez,**
Luis Cisneros Sotelo****

Resumen

Objetivo: Comunicar la experiencia del primer caso de resección laparoscópica de un leiomioma esofágico del segmento broncodiafragmático realizado en nuestro hospital.

Sede: Hospital Regional de tercer nivel de atención.

Descripción del caso: Se llevó a cabo en un paciente masculino de 42 años de edad en noviembre de 2003, la resección laparoscópica transhiatal de un leiomioma esofágico del tercio inferior, a quien el diagnóstico de esta tumoración se realizó de manera incidental durante el control tomográfico de una pancreatitis biliar que el paciente presentara 4 meses atrás. El estudio preoperatorio incluyó serie esofagogastroduodenal (SEGD), endoscopia esofágica con toma de biopsia y tomografía axial computada.

La enucleación de la tumoración de 30 cm de longitud y 70 gramos de peso se concluyó exitosamente por medio de este abordaje transhiatal, verificándose la integridad de la mucosa esofágica con endoscopia transoperatoria. El paciente fue dado de alta a las 30 h. después de la cirugía, tolerando la vía oral y con Rx de tórax normal. Un esofagograma de control se realizó a los 30 días del posoperatorio sin evidencia de obstrucción o reflujo gastroesofágico, permaneciendo asintomático y sin cambios radiológicos en relación al primer estudio después de 180 días. No existieron focos de malignidad en el estudio histopatológico y se corroboró el diagnóstico con estudios de inmunohistoquímica.

Conclusión: El leiomioma es una tumoración benigna que rara vez ocurre en el esófago y más aún con el tamaño del aquí reportado. Este caso expone la posibilidad de un nuevo abordaje y sus beneficios.

Palabras clave: Leiomioma, laparoscopia, esófago.

Abstract

Objective: To communicate the experience from the first case of laparoscopic resection of an esophageal leiomyoma from the bronchodaphragmatic segment carried out in our hospital.

Setting: Third level health care regional Hospital.

Description of the case: On November 2003, a transhiatal laparoscopic resection of an esophageal leiomyoma of the third lower part was practiced to a 42-year old male patient, who was incidentally diagnosed this tumor during the tomographic imaging practiced due to a biliary pancreatitis that the patient had presented four months before. The pre-operative study included SEG D, esophageal endoscopy with a sample for biopsy and axial computed tomography. The enucleation of the 30 cm-length and 70 grams of tumor weight concluded successfully by the means of a transhiatal laparoscopic boarding, with the verification of the esophageal mucosa integrity through trans-operative endoscopy. The patient was discharged 30 hrs after the surgery, tolerating liquids and presenting a normal thorax x-ray. A control esophageogram was practiced 30 days after the postoperative period without evidence of reflux, remaining asymptomatic and without any radiological changes after 180 days regarding the first study. There was no malignity evidence in the histopathologic study and the diagnosis was confirmed through studies of immunohistochemistry.

Conclusion: Leiomyoma is a benign tumor that rarely occurs in the esophagus and even more rarely presents the size reported here. This report exposes the possibility of a new approach and its benefits.

Key words: Leiomyoma, laparoscopy, esophagus.

INTRODUCCIÓN

Morgagni fue el primero en describir el leiomioma como una neoplasia gastrointestinal distinta en 1761, fue Munro en 1761 el primero en reportar un leiomioma del esófago de localización intramural.¹⁻³ Sauerbruch fue el primero en reportar el tratamiento exitoso del leiomioma esofágico cuando realizó una resección esofágica con gastroesofagostomía en 1932.⁴ Un año después Oshawa realizó la primera enucleación quirúrgica.⁵

Varios años atrás el término de tumor del estroma gastrointestinal fue introducido como un término neutral histoge-

* Servicio de Cirugía General, Hospital Regional "Lic. A. López Mateos" ISSSTE. Servicio de Cirugía, Hospital Ángeles México. Profesor Titular de Pre-Grado Cirugía II UNAM.

** Médico adscrito al Servicio de Cirugía General, Hospital "A. López Mateos" ISSSTE.

*** Director de la Clínica Zubirán, FACS.

**** Jefe del Servicio de Patología, Hospital "Lic. A. López Mateos" ISSSTE.

néticamente para referirse a todos los tumores mesenquimatosos del tracto gastrointestinal, incluyendo aquéllos originados en células de músculo liso; pero evidencias recientes indican que la mayoría de los tumores del estroma gastrointestinal comprenden un grupo de neoplasias distintas del leiomioma y leiomiosarcoma, basado sobre inmunohistoquímica, ultraestructural y marcadores genéticos moleculares. Cuatro marcadores inmunohistoquímicos usualmente forman la base de diferenciación: típicamente el leiomioma es positivo para desmina y actina de músculo liso y negativo para CD34 y CD117, lo que ocurre al contrario en los tumores del estroma gastrointestinal.⁶⁻⁸ El leiomioma es un tumor benigno que rara vez ocurre en el esófago. Sólo el 1% de los tumores del esófago son leiomiomas,¹ aunque de entre los tumores submucosos de esófago es el más frecuente. Usualmente se origina de las capas musculares de la pared y crece espiralmente alrededor del esófago.⁹ En una serie de 1,844 casos de tumores del esófago, recopilada de 1875 a 1996, resultaron 1,679 leiomiomas y 165 leiomiosarcomas, la edad en la que se presentaron los tumores benignos fue de 30 a 59 años, mientras que la mayor frecuencia de tumores malignos ocurrieron de los 60 a 69 años con una localización más común en el tercio inferior. Los leiomiomas presentaron más frecuentemente un crecimiento intramural y los leiomiosarcomas fueron predominantemente intraluminal, en esta serie la mayoría de los pacientes presentaron disfagia y dolor o incomodidad, los pacientes con leiomiosarcomas adicionalmente presentaron pérdida de peso. El promedio de los síntomas varía de 1 mes a 1 año y los tumores malignos crecen más que los benignos. Aproximadamente un tercio de los leiomiosarcomas tienen metástasis al momento del diagnóstico y tienen una supervivencia a 5 años aproximadamente del 20%.¹⁰ Sólo el 2% de los leiomiomas son extraesofágicos.¹¹ Puede manifestarse también por disfagia, dolor torácico subesternal, vómito, regurgitación, dolor epigástrico, y pérdida de peso. Ocasionalmente puede parecerse a la acalasia o presentarse con disritmia cardiaca. Es asintomático en una gran proporción de pacientes y puede ser reconocido sólo accidentalmente.¹² En un análisis retrospectivo de 141 pacientes, once fueron mal diagnosticados como enfermedad maligna del esófago, trece recibieron resección parcial del esófago, incluyendo dos pacientes con tumor gigante, tres todavía mal diagnosticados como malignos y ocho acompañados con carcinoma esofágico o del cardias. Ciento veintiocho pacientes fueron tratados sólo con remoción del tumor, la mucosa esofágica fue lesionada y suturada en trece pacientes. El tumor fue único en 130 pacientes y múltiple en 11. La forma del tumor fue oval, en herradura o en forma de jengibre. El tumor rodeaba el esófago en menos de la mitad de su circunferencia en 75 pacientes, más de la mitad en 59 y envolviendo toda la circunferencia en 7. El tumor fue poli-

poide e intraluminal sólo en un paciente. Fue extraluminal en dos e intramural en los demás. La tasa de morbilidad y mortalidad a treinta días fue de 3.6% y 0% respectivamente.¹³ Aunque los leiomiomas esofágicos son raros en la población pediátrica, frecuentemente ocurren en asociación con otras anomalías, tales como el síndrome de Alport, osteoartropatías y leiomiomas en cualquier parte del cuerpo.¹⁴ Existe evidencia de pérdida de heterocigosidad 11q13 en pacientes con neoplasia endocrina múltiple tipo 1 asociada con leiomiomas esofágicos y uterinos.¹⁵

El tratamiento quirúrgico de este tipo de tumoraciones varía de acuerdo a su localización, siendo en ocasiones necesaria la ligadura de la vena ácigos para una buena movilización del esófago en localizaciones de hemitórax derecho.¹⁶

La resección del esófago puede ser llevada a cabo si la enucleación es imposible para tumores gigantes o tumores anillados en la unión esofagogastrica o si la herida de la mucosa no puede ser reparada. La resección endoscópica está indicada para leiomiomas pediculados. La transformación maligna es excepcional, pero una asociación entre miomatosis esofágica y carcinoma del esófago es posible. Ciertos autores proponen la resección en todos los casos, aun en leiomiomas pequeños asintomáticos.¹

El leiomioma esofágico puede mostrar un gran crecimiento extraluminal hacia el mediastino, en estos casos deberá ser tratado con cirugía torácica videoasistida.¹⁷ En algunos casos su resección puede hacerse laparoscópicamente con asistencia manual.¹⁸

Nosotros presentamos el caso de un paciente con un leiomioma en el segmento broncodiafragmático del esófago y se destaca el abordaje laparoscópico transhiatal como una excelente opción en leiomiomas de esta localización.

Presentación del caso

Un hombre de 42 años de edad se presentó al servicio de urgencias de nuestro hospital con cuadro de pancreatitis aguda de origen biliar, sometándose a colecistectomía abierta a través de una incisión subcostal derecha de 20 centímetros, durante la evaluación tomográfica posoperatoria de la pancreatitis se demostró incidentalmente una masa tumoral en el tercio inferior del esófago (*Figura 1*). El paciente se encontraba asintomático con una adecuada ingestión de alimentos líquidos y sólidos, recuperando su peso habitual tres meses después. Una serie esofagogastroduodenal mostró un esófago dilatado y con defectos de llenado a nivel del tercio inferior con una unión esofagogastrica patológica (*Figura 2*). El estudio endoscópico convencional reveló una tumoración tortuosa, submucosa y circunferencial, ligeramente por arriba de la unión esofagogastrica (*Figura 3*) sin evidencia de obstrucción o afección de la mucosa, el Servicio de Endoscopia

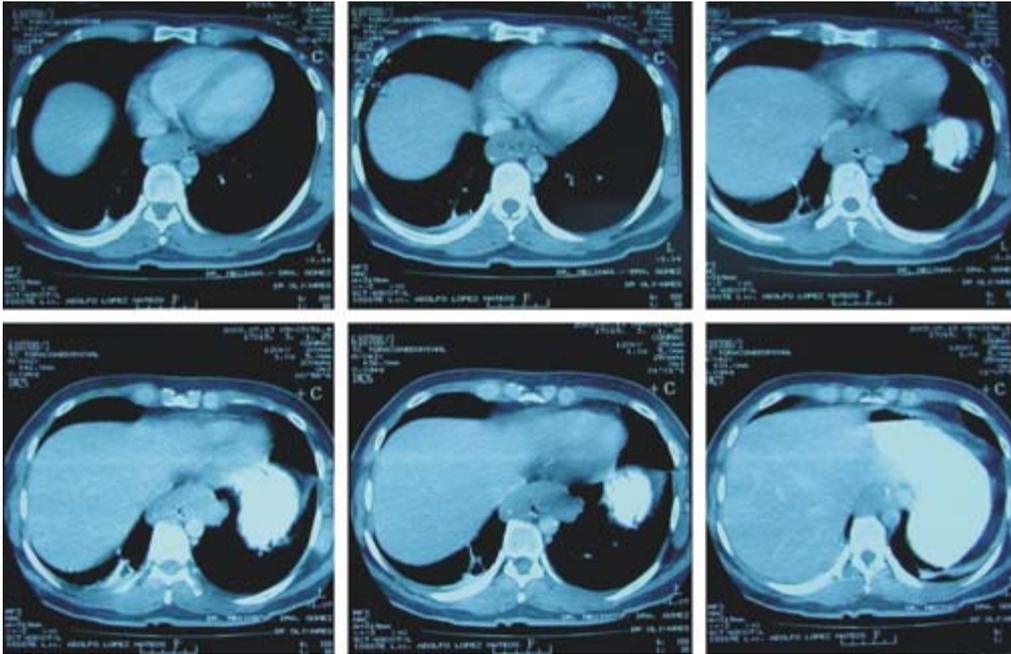


Figura 1. Tomografía con hallazgo del leiomioma. Nótese el aumento del espesor de las paredes y disminución de la luz del tercio inferior del esófago.

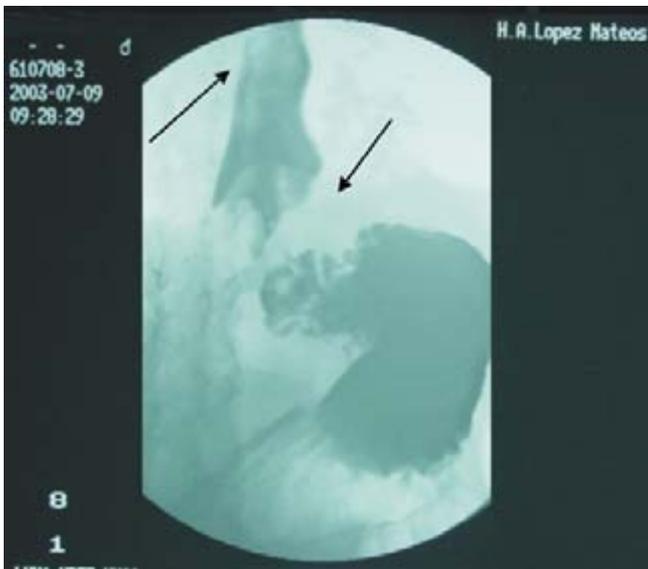


Figura 2. SEGD mostrando defecto de llenado del tercio inferior del esófago.



Figura 3. Endoscopia mostrando tumoración submucosa, tortuosa y circunferencial.

decidió practicar una biopsia de las tumoraciones, resultando un sangrado copioso que se controló con la aplicación de clips. El estudio de dicha biopsia reportó un leiomioma.

Con estos antecedentes el paciente fue tratado en la Clínica de Esófago-Estómago-Duodeno donde previa preparación de colon, se llevó al paciente a disección laparoscópica del hiato esofágico con la técnica habitual utilizada por nosotros

para la realización de una funduplicatura,¹⁹ identificando que la tumoración iniciaba a 4 cm por arriba de la unión esofagogástrica, por lo que la apertura de tres centímetros del hiato esofágico a nivel de su zona tendinosa fue neces-

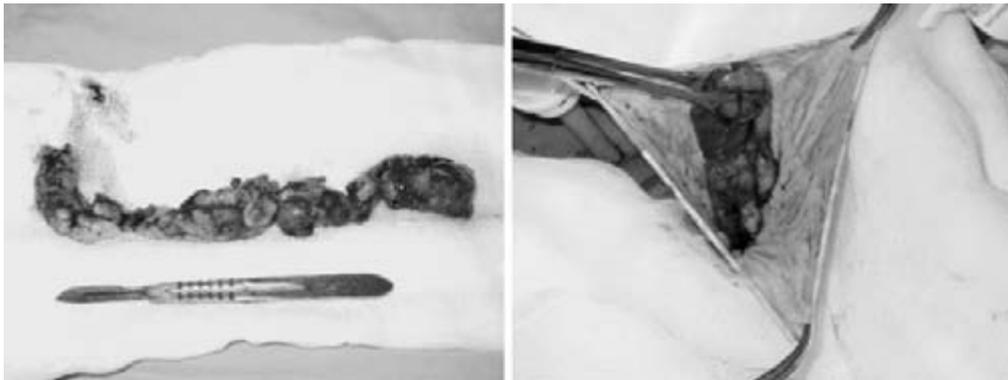


Figura 4. Leiomioma esofágico de 30 centímetros y 70 gramos. Pieza quirúrgica y su extracción laparoscópica.

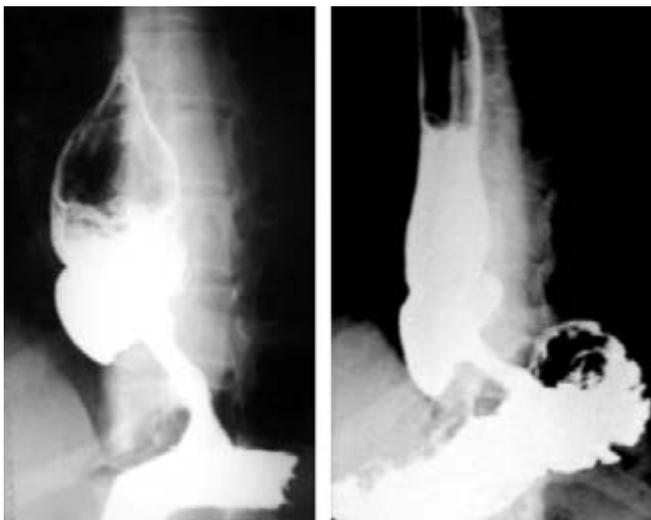


Figura 5. Esófagograma posoperatorio de control a 30 y 180 días, mostrando su localización broncodiafragmática.

ria para iniciar la enucleación de un leiomioma de 30 cm de longitud y 2 a 3 cm de ancho (*Figura 4*) que ocupaba una posición circunferencial y serpenteante en cinco centímetros de la porción intramural del esófago en su segmento broncodiafragmático, extrayéndose en una bolsa prefabricada con un guante de cirujano a través del trócar de la línea media. El estudio endoscópico transoperatorio mostró la mucosa esofágica intacta con herniación de la submucosa a la insuflación del endoscopio 4 cm encima de la unión esofagogástrica, por lo que no se practicó procedimiento anti-reflujo. El cierre del hiato esofágico, previamente abierto, se realizó con dos puntos en cruz intracorpóreos de seda del 1, lo que ocultó la zona cruenta del esófago. La radiografía de tórax en un control a 4 h de terminada la cirugía mostró buena expansión pulmonar.

La dieta líquida se inició a las 20 horas del posoperatorio y el paciente egresó a su domicilio 30 horas después de la

cirugía con recomendación de dieta blanda después de las 48 horas.

A los 30 y 180 días de cirugía no existieron síntomas de reflujo ni disfagia y el esófagograma de control demuestra buen paso del material de contraste sin reflujo durante las maniobras de Valsalva o sifón (*Figura 5*). El reporte definitivo de patología con inmunohistoquímica positivo a actina y desmina (*Figura 6*) concluyó leiomioma esofágico sin focos de malignidad con un peso de 70 gramos, 30 cm de longitud y 2-3 cm de ancho.

DISCUSIÓN

El tratamiento quirúrgico del leiomioma esofágico ha sido propuesto de muy diversas maneras, sin embargo su abordaje transhiatal laparoscópico no ha sido descrito.^{1,13,16-18}

En el manejo actual del leiomioma esofágico debemos considerar tres aspectos: su localización, aspecto endoscópico y tamaño. Dentro de los estudios diagnósticos la ultrasonografía endoscópica (UE) determina esencialmente el origen de la capa de la que proviene el tumor, lo que es primordial para el diagnóstico y tratamiento del leiomioma. Sin embargo, la UE no distingue la naturaleza de una masa intramural, en particular la diferenciación entre leiomioma y un quiste extramucoso debido a la alta densidad de algunos quistes, y tampoco entre tumores benignos y malignos en especial para lesiones de más de 3 cm. A pesar de esto su uso en conjunto con otros métodos diagnósticos permite inferir al clínico el diagnóstico correcto.

Los hallazgos del esófagograma se describen como defectos de llenado excéntrico y ligeramente elevados y multilobulados, la tomografía revela márgenes del tumor bien limitados y lobulados con atenuación ligeramente baja o igual y localizados más al tercio medio y distal.²⁰ Sin embargo, el diagnóstico diferencial de certeza es superior con el ultrasonido transesofágico (95.7%) que con la tomografía (42.9%).²¹

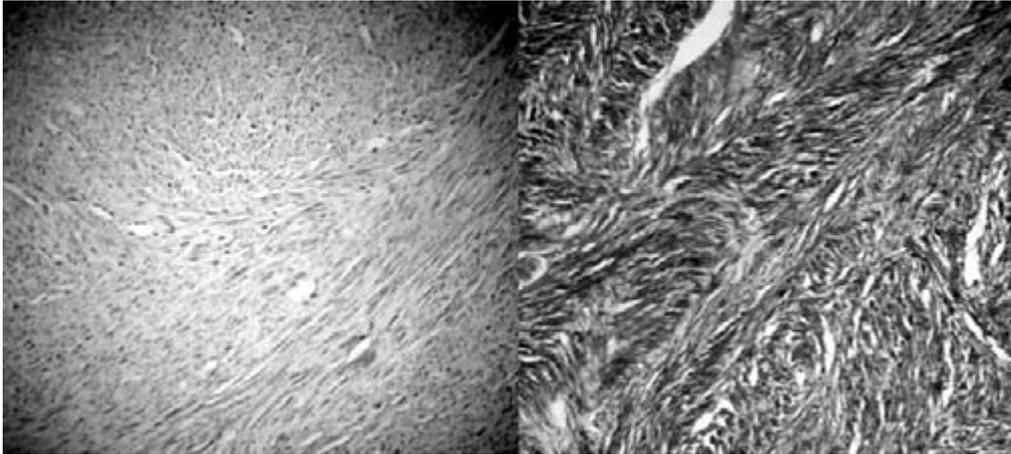


Figura 6. Reacciones de inmunohistoquímica positivas para desmina y actina específica de músculo liso y tricrómico de Masson que muestra los haces musculares que contrastan con tejido fibroso.

Algunos autores contraindican la biopsia endoscópica, argumentando mayor riesgo transoperatorio de perforación durante la resección del tumor. No obstante, otros en fechas recientes han descrito el uso de la aspiración con aguja fina guiada por ultrasonografía endoscópica para conseguir un diagnóstico definitivo del leiomioma esofágico basado en la citología, si bien la frecuencia de complicaciones durante la resección quirúrgica con este nuevo método diagnóstico es desconocida, se necesita la experiencia de más casos para valorar profundamente la seguridad y utilidad de esta técnica en la evaluación del leiomioma esofágico.^{22,23}

El tratamiento quirúrgico de los pacientes con leiomiomas asintomáticos es debatible, las razones comúnmente citadas son: que su transformación maligna es extremadamente rara; su crecimiento es lento y puede no cambiar en años; clínicamente su curso es benigno y la cirugía puede causar más daño que beneficio. A pesar de esto el diagnóstico definitivo es histológico y sólo así se puede excluir su malignidad.^{24,25} Algunos investigadores recomiendan la evaluación con UE cada 1 a 2 años en quienes presenten lesiones pequeñas.²⁶

El incremento en el tamaño del tumor además de los datos de síntomas de disfagia y ulceración de la mucosa indican la cirugía, siendo la enucleación por toracotomía el procedi-

miento más usado. En años recientes la toracoscopia se ha incrementado para su tratamiento, habiéndose reportado un total de 30 casos desde 1992 en la literatura, con resultados similares. La resección laparoscópica asistida con la mano fue recientemente reportada.

En este artículo presentamos el caso de un leiomioma esofágico, de un abordaje transhiatal laparoscópico, que rodeaba totalmente el esófago en su segmento broncodiafragmático en una longitud de 5 cm y a 4 cm de la unión esofagagástrica, lo que no obligó a efectuar un procedimiento antirreflujo. Aunque se aconseja efectuar el cierre de las fibras musculares que rodean al esófago del sitio de resección de la lesión para evitar la disfagia tardía que la herniación de la mucosa pudiera provocar, hacerlo debe evitar que el esófago se estenose, sobre todo en las zonas largas de desnudación como fue en nuestro caso.²⁷⁻³¹

CONCLUSIONES

Se concluye que el resultado inmediato del paciente fue excelente con todos los beneficios conocidos de la cirugía endoscópica, lo que manifiesta las posibilidades de un nuevo método en el manejo de estas lesiones, ya que no encontramos antecedente alguno al revisar la literatura.

REFERENCIAS

1. Sabbah F, Oudanane M, Ehirchiou A, Raiss M, Hrorra A, Benamer A, Baroudi S, Ahallat M, Hosni K, M'jahed A, Halhal A, Tounsi A. Sabbah F-*Presse Med*- 2001; 30(23): 1148-50 (Abstract-Internet) *From NIH/NLM MEDLINE*
2. Businco A. Sui Miami esofagei [Latin]. *Am Farol Med Chir Univ Perugia* 1938; 37: 5: Citado en Lawrence SL, Sunil S, Clayton JB, Blair M, Michael LK, Larry RK, John CK. Current management of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 2004; 198: 136-146.
3. Georgiades N, Chomatos I. Leiomyoma of the esophagus-cyst of the esophagus. *Hellen Chir* 1962; 9: 579: Citado en Lawrence SL, Sunil S, Clayton JB, Blair M, Michael LK, Larry RK, John CK. Current management of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 2004; 198: 136-146.

4. Munro J. Disputatio medica unauurales de disfagia [Latin]. Edinburgh, 1797.
5. Sauerbrunch F. Presentation in the field of thoracic surgery. *Arch Klin Chir* 1932; 173: 457. Citado en Lawrence S L, Sunil S, Clayton JB, Blair M, Michael LK, Larry RK, John CK. Current management of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 2004; 198: 136-146.
6. Suster S. Gastrointestinal stromal tumors. *Semin Diagn Pathol* 1996; 13: 297-313.
7. Miettinen M, Sarlomo-Rikala M, Losata J. Gastrointestinal stromal tumors: recent advances in understanding of their biology. *Hum Pathol* 1999; 30: 1213-1220.
8. Miettinen M, Sarlomo-Rikala M, Sobón LH, Losata J. Esophageal stromal tumors: a clinical-pathologic, immunohistochemical, and molecular genetic study of 17 cases and comparison with esophageal leiomyomas and leiomyosarcomas. *Am J Surg Pathol* 2000; 24: 211-222.
9. Kajiyama Y, Iwanuma Y, Tomita N, Amano T, Uchida Y, Kudo K, Ando T, Tsurumaru M. Surgery for benign submucosal tumors of the esophagus (leiomyoma and hemangioma). *Nippon Geka Gakkai Zasshi* 2003; 104: 593-6.
10. Hatch GF 3rd, Wertheimer-Hatch L, Hatch KF, Davis GB, Blanchard DK, Foster RS Jr, Skandalakis JE. Tumors of the esophagus. *World J Surg* 2000; 24: 401-11.
11. de Csepel J, Jossart G, Salky BA. Laparoscopic resection of an extraesophageal leiomyoma presenting as an intra-abdominal mass. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2001; 11: 116-8.
12. Letter to the Editor, Esophageal leiomyoma incidentally recognized during an acute attack of hereditary angioneurotic edema. *J Allerg Clin Immunol* 2001; 107.
13. Wang Y, Zhang R, Ouyang Z, Zhang D, Wang L, Zhang D. Diagnosis and surgical treatment of esophageal leiomyoma. *Chinese J Oncol* 2002; 24: 394-6.
14. Lee H, Morgan K, Abramowsky C, Ricketts RR. Leiomyoma at the site of esophageal atresia repair. *J Pediatr Surg* 2001; 36: 1832-3.
15. McKeerby JL, Li X, Zhuang Z, Vortmeyer AO, Huang S, Pirner M, Skarulis MC, James-Newton L, Marx SJ, Lubensky IA. Multiple leiomyomas of the esophagus, lung and uterus in multiple endocrine neoplasia type. *Am J Pathol* 2001; 159: 1121-7.
16. Izumi Y, Inoue H, Takeshita K, Kawano T, Yoshino K, Endo M. Thoracoscopic enucleation of leiomyoma of the esophagus. Report of two cases. *Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* Japanese Assoc Thorac Surg 1995; 43: 216-20.
17. Tamura K, Takamori S, Tayama K, Mitsuoka M, Hayashi A, Fujita H, Shirouzu K. Thoracoscopic resection of a giant leiomyoma of the esophagus with a mediastinal Outgrowth. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 1998; 4: 351-3.
18. Redan JA, Gardner JC, Tylutki FJ. Hand-assisted laparoscopy for the removal of an esophageal leiomyoma. *Soc Laparosc Surg* 2001; 5: 167-9.
19. Benítez BJ, Hernández RA, Zubirán MM, Manzano SB. Búsqueda de la restitución quirúrgica de la fisiología esofagagástrica en la enfermedad por reflujo gastroesofágico. Evaluación prospectiva. *Rev Mex Cir Endoscop* 2002; 3: 155-161.
20. Yang PS, Lee KS, Lee SJ, Kim TS, Choo IW, Shim YM, Kim K, Kim Y. *Korean J Radiol* 2001; 2: 132-7.
21. Wang Y, Sun Y, Liu Y, Li Y, Wang Z. Transesophageal intraluminal ultrasonography in diagnosis and differential diagnosis of esophageal leiomyoma. *Chung-Hua I Hsueh Tsa Chih, Chinese Med J* 2002; 82: 456-8.
22. Stelow EB, Stanley MW, Mallery S et al. Endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration findings of gastrointestinal leiomyomas and gastrointestinal stromal tumors. *Am J Clin Pathol* 2003; 119: 703-708.
23. Henke AC, Solamao DR, Timmerman TG, Hughes JH. Fine-needle aspiration cytology of esophageal leiomyomatosis. *Diagn Cytopathol* 1999; 21: 197-199.
24. Hatch GF 3rd, Wertheimer-Hatch L, Hatch KF et al. Tumors of the esophagus. *World J Surg* 2000; 24: 401-411.
25. Rendina EA, Venuta F, Pescarmona EO et al. Leiomyoma of the esophagus. *Scand J Torca Cardiovasc Surg* 1990; 24: 79-82.
26. Zuccaro G Jr, Rice TW. Tumors of the esophagus. In: Brandt LJ, ed. *Clinical practice of gastroenterology*. Philadelphia: Churchill Livingstone; 1999: 131-134.
27. Bonavina L, Segalin A, Rosati R et al. Surgical therapy of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 1995; 181: 257-262.
28. Roviario GC, Maciocco M, Varoli F et al. Videothoracoscopic treatment of oesophageal leiomyoma. *Thorax* 1998; 53: 190-192.
29. Bardini R, Asolati M. Thoracoscopic resection of benign tumours of the esophagus. *Int Surg* 1997; 82: 5-6.
30. Everitt NJ, Glinatsis M, McMahon MJ. Thoracoscopic enucleation of leiomyoma of the oesophagus. *Br J Surg* 1992; 79: 643.
31. Gossot D, Fourquier P, el Mateini, Celerier M. Technical aspects of endoscope removal of benign tumors of the esophagus. *Surg Endosc* 1993; 7: 102-103.

Correspondencia:

Dr. Javier Benítez Beltrán

Hospital Ángeles México

Agrarismo 208 7º piso Torre "B"

Col. Escandón 11800

Del. Benito Juárez

México, D. F.

Tel. 5277 6399 y 6409 Fax. 5272 5851

E-mail: benitezbj@prodigy.net.mx

