



Leiomomatosis vulvovaginal: reporte de un caso y revisión bibliográfica

Vulvo-Vaginal Leiomyomatosis: Case Report and Review of the Literature.

Luis Russi,¹ Valeria Blengio,² Patricia Gortari,¹ Julio Citera³

Resumen

ANTECEDENTES: Los leiomiomas son los tumores pélvicos más frecuentes en la mujer; sin embargo, su localización vaginal es excepcional. Suelen ser asintomáticos y encontrarse como un hallazgo clínico. En los últimos 20 años solo se han reportado 85 casos, y solo dos han sido recurrentes.

OBJETIVO: Reportar un caso de miomatosis vaginal recurrente en una paciente histerectomizada y revisar la bibliografía al respecto.

CASO CLÍNICO: Paciente de 58 años, histerectomizada, con una tumoración vaginal. El reporte histopatológico informó una proliferación fusocelular, debidamente delimitada, dispuesta en haces entrecruzados. Los núcleos eran alargados, monomorfos y de extremos romos. El estroma era escaso y colagénico. No se observaron atipias citonucleares ni necrosis. El estudio immunohistoquímico de la lesión con actina de anticuerpos antimúsculo liso y desmina se reportó positivo. Se diagnosticó miomatosis vulvovaginal recurrente. Se trató mediante resección quirúrgica.

CONCLUSIÓN: Los leiomiomas vulvovaginales son extremadamente raros y la bibliografía al respecto es poca; su recurrencia es verdaderamente excepcional. De ahí la importancia de la publicación de estos casos, que aporta información que pueden tomar en cuenta otros clínicos al momento del diagnóstico.

PALABRAS CLAVE: Leiomioma; neoplasias vaginales; neoplasias pélvicas; actina; desmina; edad media; tumores pélvicos; histerectomía; necrosis.

Abstract

BACKGROUND: Leiomyomas are the most frequent pelvic tumors in women; however, their vaginal location is unusual. They are usually asymptomatic and present as a clinical finding. In the last 20 years only 85 cases have been reported, and only two have been recurrent.

OBJECTIVE: To report a case of recurrent vaginal myomatosis in a hysterectomized patient and review the literature.

CLINICAL CASE: A 58-year-old hysterectomized patient with a vaginal tumor. The histopathologic report reported a fusocellular proliferation, properly delimited, arranged in crisscross bundles. The nuclei were elongated, monomorphic and blunt ended. The stroma was sparse and collagenous. No cytonuclear atypia or necrosis were observed. Immunohistochemical study of the lesion with anti-smooth muscle antibody actin and desmin was reported positive. Recurrent vulvovaginal myomatosis was diagnosed. It was treated by surgical resection.

CONCLUSION: Vulvovaginal leiomyomas are extremely rare, and the literature is sparse; their recurrence is truly exceptional. Hence the importance of publishing these cases, providing information to be considered by other clinicians at the time of diagnosis.

KEYWORDS: Leiomyoma; Vaginal neoplasms; Pelvic neoplasms; Actins; Desmin; Middle age; Pelvic tumors; Hysterectomized; necrosis.

¹ Asistente de la Clínica Ginecotocológica C.

² Residente de la Clínica Ginecotocológica C.

³ Jefe del Departamento Ginecoobstétrico.

Hospital Central de las Fuerzas Armadas, Universidad de la República. Montevideo, Uruguay. Clínica Ginecotocológica "C" Prof. Dr. Claudio Sosa.

Recibido: febrero 2021

Aceptado: abril 2021

Correspondencia

Valeria Blengio

valeriablengio@gmail.com

Este artículo debe citarse como: Russi L, Blengio V, Gortari P, Citera J. Leiomomatosis vulvovaginal: reporte de un caso y revisión bibliográfica. Ginecol Obstet Mex. 2021; 89 (10): 826-831.



ANTECEDENTES

Los leiomiomas son los tumores pélvicos más frecuentes en la mujer. Casi siempre se localizan en el útero y realmente es excepcional encontrarlos en otras localizaciones, como la vagina,^{1,2,3} por eso se desconoce su prevalencia real.

En la bibliografía internacional se han reportado alrededor de 300 casos de localización vulvovaginal.^{2,4,5} En los últimos 20 años solo se han informado 85 casos.³ De éstos solo 6 son de miomatosis vaginal en pacientes hysterectomizadas.⁵ Solo están publicados dos casos de presentación recurrente.^{3,5} No se encontraron reportes de casos publicados que asocien ambas características (miomatosis vulvovaginal recurrente en paciente hysterectomizada) como sucedió en la paciente del caso. Tampoco se encontraron informes de miomatosis vulvovaginal provenientes de Sudamérica.

Estos tumores suelen cursar asintomáticos y su hallazgo siempre es fortuito en los exámenes ginecoobstétricos.^{1,6} El diagnóstico es clínico y puede requerir estudios de imagen; su confirmación es anatopatológica.¹

El tratamiento de elección para los leiomiomas vaginales es la escisión quirúrgica, que es curativa y diagnóstica al excluir la malignidad.²

CASO CLÍNICO

Paciente de 58 años, originaria de Montevideo, Uruguay. Antecedentes ginecoobstétricos: 7 embarazos: 6 partos y 1 cesárea. Menopausia quirúrgica a los 36 años, hysterectomía y salpingectomía sin ooforectomía por peritonitis difusa aguda a punto de partida de piosalpinx. Antecedente quirúrgico de resección de 3 tumoraciones vulvares de 5, 10 y 3 cm, con diagnóstico histopatológico definitivo de leiomiomatosis vulvar, hacia 10 años.

Acudió a la consulta ginecológica debido a la aparición de una tumoración de localización vaginal, de un mes de evolución, indolora, sin otros síntomas acompañantes. Durante el examen físico se comprobó la existencia de una tumoración en la pared anterior de la vagina, de límites netos, de 5 cm de diámetro mayor, redondeada, de superficie lisa, firme, elástica e indolora a la palpación.

En la ecografía se reportó la ausencia del útero (histerectomizada) y de imágenes patológicas en torno de la pelvis; en la vagina sí se observó una imagen de 40 mm, inhomogénea. **Figura 1**

La ecografía del aparato urinario reportó que la vejiga estaba distendida, con paredes finas, sin imágenes patológicas en su interior. En contacto con el piso vesical y la pared anterior de la vagina se observó una imagen redondeada, sólida, hipoecoica, de ecoestructura homogénea, bien delimitada, de aproximadamente 40 x 35 mm.

En la resonancia magnética se advirtió la existencia de una tumoración inter-uretrovaginal voluminosa, de morfología prácticamente esférica, con diámetro máximo de 45 mm. La imagen

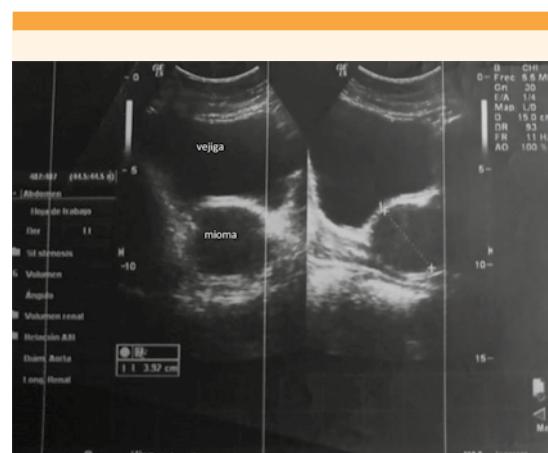


Figura 1. Ecografía ginecológica abdominal.

vaginal estaba colapsada y desplazada en sentido posterior. El piso vesical se encontró elevado, sin signos de infiltración local. En virtud de su intensidad de señal en las distintas secuencias y comportamiento con el contraste inyectado pudo tratarse de un probable leiomioma uretral. En los territorios explorados no se encontraron adenopatías.

El tumor midió 5 x 4 cm, de consistencia firme, paredes lisas y con plano de separación de la uretra. **Figuras 2 y 3**

El estudio histopatológico reportó que se trataba de una proliferación fusocelular, debidamente delimitada, dispuesta en haces entrecruzados. Los núcleos eran alargados, monomorfos y de extremos romos. El estroma era escaso y collagenico. No se observaron atipias citonucleares ni necrosis. El estudio inmunohistoquímico de la lesión se hizo con actina de anticuerpos

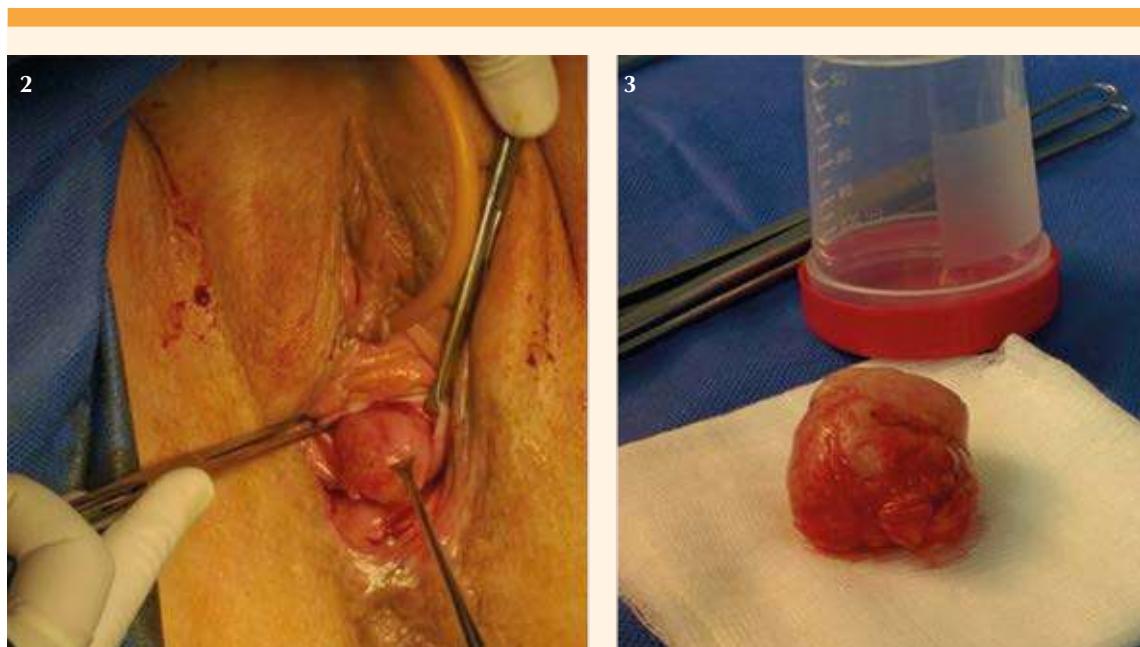
antimúsculo liso y desmina: ambos anticuerpos se reportaron positivos. En suma: se trató de un leiomioma típico suburetral, con conteo mitótico en el rango de benignidad. **Figura 4**

Se realizó una revisión bibliográfica en PubMed y se encontraron 11 artículos relacionados con miomatosis vulvovaginal, todos eran casos clínicos.

DISCUSIÓN

Los leiomiomas del aparato genital femenino son tumores benignos, comunes en el útero y relativamente frecuentes en el cuello uterino y poco menos en el ligamento redondo, ligamentos útero sacros, ovarios y canal inguinal. La presentación vaginal es la más rara de todas.⁸

Tanto la mucosa como la submucosa vaginal están rodeadas por una capa muscular lisa, de



Figuras 2 y 3. Tumorectomía y pieza resecada.

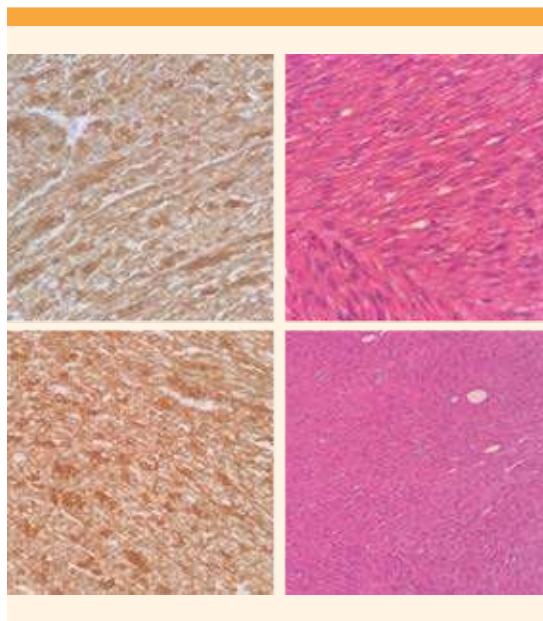


Figura 4. Imagen histopatológica de la pieza extraída.

la que pueden formarse los leiomiomas.^{1,4} Hay autores que proponen que podrían originarse de restos embrionarios musculares de alguna arteria local.^{1,3,4} El papel de los estrógenos y del factor de crecimiento epidérmico en su evolución y crecimiento se ha estudiado y demostrado, lo mismo que su posible relación con anomalías citogenéticas.^{1,3} Los casos de recurrencia han sido en pacientes con bajo tenor estrogénico, como en las ooforectomizadas, sin terapia de reemplazo hormonal.⁵ Éste podría ser el escenario en el que se encontraba la paciente del caso clínico porque la recurrencia fue a una edad fisiológicamente hipoestrogénica.

Los leiomiomas vaginales se han descrito en pacientes de diferentes edades, pero la media de presentación es a los 40 años,⁹ con un tamaño que varía de 3 hasta 15 cm, con media de 5 cm.¹ Lo destacado en la paciente del caso fue la edad inusual de presentación (58 años), con un tamaño acorde con el resto de los reportes.

En la paciente del caso, el leiomioma se encontró en la pared vaginal anterior que, de acuerdo con la bibliografía internacional, es la localización más frecuente, aunque pueden aparecer en la cara posterior o en los laterales de la vagina.^{2,3}

Su procedencia no solo se limita al músculo vaginal; también puede ser de origen vesical, uretral, vascular, cervical, rectal o anal.¹

Por lo general, estos tumores suelen cursar asintomáticos y su hallazgo casi siempre es fortuito en los exámenes ginecoobstétricos.^{1,7} Cuando las pacientes tienen síntomas, lo común es que sean urinarios: dificultad para orinar, disuria y polaquiuria. El síntoma ginecológico más frecuente es la dispareunia, que incluso puede concurrir con genitorragia. La mayoría de las pacientes (como la del caso) solo describen una masa que protruye hacia la vagina.³

Si bien la clínica y el examen ginecológico pueden guiar hacia el diagnóstico, a veces es necesario el apoyo de algún estudio de imagen¹ que aporte datos de la morfología y de relación con estructuras anatómicas adyacentes.³ Las características de las imágenes obtenidas por ultrasonido, tomografía o resonancia magnética se asemejan a las de un mioma cervical. En esta última aparecen como masas sólidas, bien delimitadas, con una baja intensidad de señal en T1 y T2.⁸ Si bien se contó con el informe de la resonancia extraída de la historia clínica de la paciente, no se adjuntaron sus imágenes porque se extraviaron.

En caso de duda se recomienda tomar una biopsia mediante punción por vía vaginal porque el diagnóstico de certeza se establece mediante examen histológico.⁸ Los leiomiomas vaginales están compuestos de células fusiformes, con núcleos alargados y ovalados y poca o ninguna actividad mitótica.³

Como parte del diagnóstico diferencial están los quistes de Gartner, de Bartolini o de las glándulas de Skene; también debe pensarse en los divertículos uretrales, uretrocele, cistocele, rectocele y neurofibromas.^{1,7}

La degeneración sarcomatosa es poco frecuente, aunque más común en los leiomiomas localizados en la pared vaginal posterior, por lo que una vez diagnosticado se aconseja su extirpación quirúrgica.^{1,2,7} La incidencia de malignidad se reporta en 9.1%.³ Al parecer es más frecuente en los tumores de rápido crecimiento y en mujeres posmenopáusicas.^{1,2} En la paciente del caso el tumor localizado en la pared vaginal anterior reveló su naturaleza benigna en el análisis histopatológico.

El tratamiento de elección para los leiomiomas vaginales es la escisión quirúrgica, que es curativa y diagnóstica al excluir la malignidad.² El acceso vaginal es el elegido en 90% de los casos, mientras que solo el 10% de los leiomiomas requiere del acceso abdominal, con o sin histerectomía concomitante.^{3,9,10}

Su recurrencia es un hecho,^{3,11} como sucedió en la paciente del caso. Dhaliwal y Rywlin describieron un caso de recurrencia de leiomioma durante el embarazo y confirmaron su dependencia hormonal.^{3,4}

No se encontraron reportes de casos publicados de miomatosis vulvovaginal recurrente en pacientes histerectomizadas, ni de reportes de Latinoamérica.

Se recomienda extirpar la pieza en bloque y evitar la morcelación para disminuir el riesgo de recurrencia.^{12,13}

En pacientes en edad reproductiva se sugiere la ooforectomía, en caso de recurrencia.¹⁰

CONCLUSIONES

Los leiomiomas vulvovaginales son extremadamente raros y la bibliografía al respecto es poca; su recurrencia es verdaderamente excepcional. De ahí la importancia de la publicación de estos casos, que aporta información que pueden tomar en cuenta otros clínicos al momento del diagnóstico. Los estudios de imagen aportan información en cuanto a la valoración del daño regional y la tumorectomía por enucleación fue el tratamiento de elección en todos los casos clínicos revisados.

REFERENCIAS

1. Valdera Simbrón CJ, Nievas Soriano M, Martí Romero M Ángel, Pulido Fernández F, Fiol Ruiz G. Leiomioma vaginal. Progresos Obstet y Ginecol 2012; 55 (3): 130-3. <https://doi.org/10.1016/j.pog.2011.07.007>
2. Costa Ribeiro V, Solheiro H, Santos Paulo A. Vaginal leiomyoma: a common disease with a rare presentation. Acta Obs Ginecol Port 2017; 11 (3): 212-5.
3. Dhaliwal LK, Das I, Gopalan S. Recurrent Leiomyoma of the vagina. Int J Gynaecol Obstet 1992; 37 (84): 281-83. [https://doi.org/10.1016/0020-7292\(92\)90330-L](https://doi.org/10.1016/0020-7292(92)90330-L)
4. Rywlin AM, Simmons RJ, Robinson MJ. Leiomyoma of vagina recurrent in pregnancy a case with apparent hormone dependency. South Med J 1969; 62 (12): 1449-51.
5. Braga A, Soave I, Caccia G, Regusci L, Ruggeri G, Pitaku I, et al. What is this vaginal bulge? An atypical case of vaginal paraurethral leiomyoma. A case report and literature systematic review. J Gynecol Obstet Hum Reprod 2020; 1-7. <https://doi.org/10.1016/j.jogoh.2020.101822>
6. Garrido MP, Sánchez ZF, Varela ST, Velasco AP, Maraver FM. Mioma vaginal intraabdominal, masa pélvica de localización atípica. Rev Cuba Obstet y Ginecol 2016; 42 (3): 361-5.
7. Ho YJ, Li PC, Cheng CH, Ding DC. Pelvic myoma arising from vaginal cuff after hysterectomy: A case report and literature review. Tzu Chi Med J 2020; 32 (4): 398-400. doi:10.4103/tcmj.tcmj_169_19
8. Rodríguez Pons OM, Guzmán García J. Mioma vaginal. Rev Cuba Obstet y Ginecol 2017; 43 (3): 152-6.
9. Patil RR, Vijay N, Joshi S. An unusual presentation of vaginal leiomyoma. J Midlife Health. 2019; 10 (4): 204-5. doi:10.4103/jmh.JMH_40_19
10. Egbe TO, Kobenge FM, Metogo JAM, Manka'a Wankie E, Tolefac PN, Belley-Priso E. Vaginal leiomyoma: Medical imaging and diagnosis in a resource low tertiary hospital: Case report. BMC Womens Health 2020; 20 (12): 1-6. doi:10.1186/s12905-020-0883-2



11. Goyal LD, Kaur H, Kaur K, Kaur S. An unusual case of vaginal myoma presenting with postmenopausal bleeding. *J Fam Reprod Heal* 2013; 7 (2): 103-4.
12. Luengo A, Zornoza V, Luengo S, Rueda JL. Mioma de pared vaginal. Una patología benigna de localización atípica. *Clin Invest Ginecol Obstet* 2010; 37 (1): 38-40.
13. Imai A, Furui T, Hatano Y, Suzuki M, Suzuki N, Goshima S. Leiomyoma and rhabdomyoma of the vagina. Vaginal myoma. *J Obstet Gynaecol (Lahore)* 2008; 28 (6): 563-6.

CITACIÓN ACTUAL

De acuerdo con las principales bases de datos y repositorios internacionales, la nueva forma de citación para publicaciones periódicas, digitales (revistas en línea), libros o cualquier tipo de referencia que incluya número doi (por sus siglas en inglés: Digital Object Identifier) será de la siguiente forma:

REFERENCIAS

1. Yang M, Gou, ZW, Deng CJ, Liang X, et al.* A comparative study of three different forecasting methods for trial of labor after cesarean section. *J Obstet Gynaecol Res*. 2017;25(11):239-42. <https://doi.org/10.1016/j.gyobfe.2015.04..0015>.**
* Cuando la referencia contiene hasta tres autores, éstos se colocarán de forma completa. En caso de 5 autores o más, solo se colocan cuatro, seguidos de la palabra en latín “et al”.
** El registro Doi deberá colocarse con el link completo (como se indica en el ejemplo).