



Bladder endocervicosis: an unusual pathology. A clinical case report and review of the literature.

Endocervicosis vesical: una entidad infrecuente. Presentación de un caso y revisión de la literatura.

Garazi Gutiérrez-Zurimendi,^{1*} Jorge García-Olaverri Rodríguez, Aranzazu Urresola-Olabarrieta,¹
 Gonzalo García de Casasola-Rodríguez,¹ Andrea Carlevaris-Fernández, David Lecumberri-Castaños,
 José Antonio Zabala-Egurrola, Antonio Arruza-Echevarría,¹

Abstract

Background: Endocervicosis of the urinary bladder is a rare benign entity that should be kept in mind in the differential diagnosis of a bladder tumor. It normally presents as a bladder mass in young women (if it is present with endometriosis and endosalpingiosis it is known as müllerianosis) or in older women with a previous history of gynecologic surgery, such as cesarean section or hysterectomy. Its clinical presentation is usually nonspecific, and it tends to be diagnosed as an incidental anatomopathologic finding after lesion exeresis.

Case Report: A 35-year-old woman presented with nonspecific urinary symptoms and a bladder mass found to be consistent with endocervicosis. A later magnetic resonance imaging study revealed associated endometriosis. A review of the literature was conducted.

Discussion: Although infrequent, endocervicosis of the urinary bladder should be considered in the differential diagnosis of bladder tumors in women and confirmed through anatomopathologic diagnosis. Treatment is based on complete exeresis of the lesion through transurethral resection of the bladder or partial cystectomy. After more than 10 years of follow-up, our patient has not presented with symptoms, recurrence, or malignization.

Keywords:

Endocervicosis,
Endosalpingiosis,
Endometriosis,
-Müllerianosis,
Bladder mass,
Partial cystectomy,
Transurethral resection

Correspondencia:

*Autor para correspondencia: Garazi Gutiérrez-Zurimendi, Hospital Universitario Cruces. Plaza de Cruces, s/n., 48903 Barakaldo, Bizkaia, España. Correo electrónico: garazigz@gmail.com

Citación: Gutiérrez-Zurimendi G., Urresola-Olabarrieta A., García de Casasola-Rodríguez G., García-Olaverri Rodríguez J., Carlevaris Fernández A., Lecumberri Castaños D. et al. *Endocervicosis vesical: una entidad infrecuente. Presentación de un caso y revisión de la literatura.* Rev Mex Urol 2019;79(4):pp. 1-7.

¹Hospital Universitario Cruces, Barakaldo, Bizkaia, España.

Recepción: 19 de julio de 2019.
Aceptación: 06 de septiembre de 2019.



Resumen

Introducción: La endocervicosis vesical es una entidad excepcional de naturaleza benigna a tener en cuenta en el diagnóstico diferencial de un tumor vesical, ya que se presenta normalmente como una masa vesical en mujeres jóvenes (en ocasiones relacionada con otras entidades como la endometriosis y/o endosalpingiosis, conocidas globalmente como müllerianosis) o en mujeres de mayor edad con antecedente de cirugía ginecológica previa como cesárea o histerectomía. Habitualmente se manifiesta con una clínica inespecífica y suele ser diagnosticada como hallazgo anatomopatológico incidental tras exéresis de la lesión.

Caso clínico: Se presenta el caso clínico de una paciente de 35 años con clínica urinaria inespecífica y hallazgo de masa vesical compatible con endocervicosis, que además presenta endometriosis asociada en resonancia magnética. Se realiza revisión de la literatura.

Discusión: Aunque infrecuente, esta entidad ha de tenerse en cuenta en el diagnóstico diferencial de las masas vesicales en mujeres y ha de confirmarse su diagnóstico anatomopatológicamente. Su tratamiento se basa en la exéresis completa de la lesión mediante resección transuretral o cistectomía parcial, resolviendo los síntomas sin haberse objetivado recidivas ni malignización tras más de 10 años de seguimiento.

Palabras clave:

endocervicosis,
endosalpingiosis,
endometriosis,
müllerianosis, masa
vesical, cistectomía
parcial, resección
transuretral.

Antecedentes

La endocervicosis es una entidad benigna e infrecuente que consiste en la presencia de glándulas mucinosas del endocérvix uterino fuera de su localización habitual.⁽¹⁻³⁾ Puede presentarse excepcionalmente en la vejiga, formando masas exofíticas en la cara posterior-fondo o cúpula vesical,⁽¹⁻⁴⁾ que pueden simular un tumor vesical, por lo que hay que tenerlo en cuenta a la hora de realizar el diagnóstico diferencial con otras lesiones vesicales benignas y malignas.^(3,4)

Presentamos el caso clínico de una paciente con endocervicosis vesical y realizamos, asimismo, una revisión de la literatura.

Caso clínico

Presentamos el caso de una mujer de 35 años que acude a consulta de urología por síntomas miccionales como disuria y hematuria desde hace 7 meses, siempre en relación con la menstruación. Tratada con múltiples antibióticos ante sospecha de infección urinaria, con urocultivos negativos. Se realiza ecografía vesical objetivando engrosamiento polipoideo de unos 14 mm en fondo hacia cara lateral izquierda, sospechoso de tumor vesical, por lo que se realiza cistoscopia confirmatoria con hallazgo de neoformación exofítica no papilar, con mucosa sobreelevada y base de implantación amplia, en la localización descrita, que impresiona de origen extravescical improntando en vejiga (Figura 1).

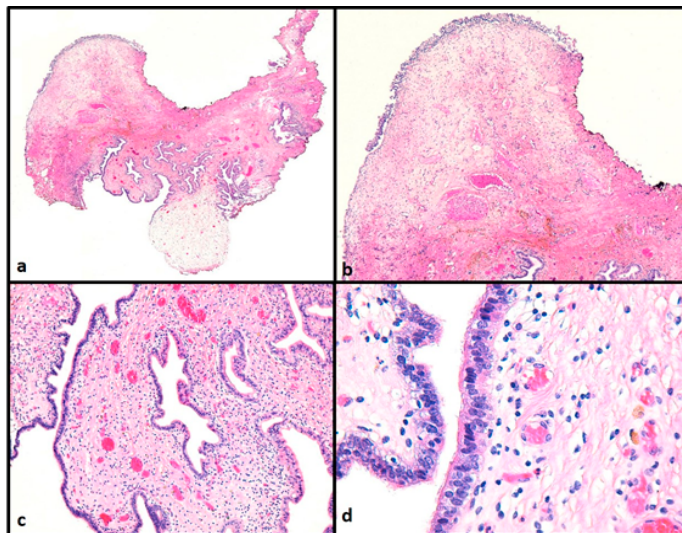
Fig. 1: Ilustración de la apariencia macroscópica de la lesión objetivada durante la cistoscopia: neoformación exofítica no papilar, con mucosa sobreelevada, sospechosa de impronta extravesical.



Ante los hallazgos sospechosos de malignidad, se decide realizar resección transuretral (RTU-v) completa de la lesión, objetivando plano muscular macroscópicamente sano. El postoperatorio transcurre sin incidencias y la paciente es dada de alta a las 48 horas con orina clara y micción sin dificultad tras retirada de la sonda vesical. La anatomía patológica es compatible con endocervicosis vesical (Figura 2).

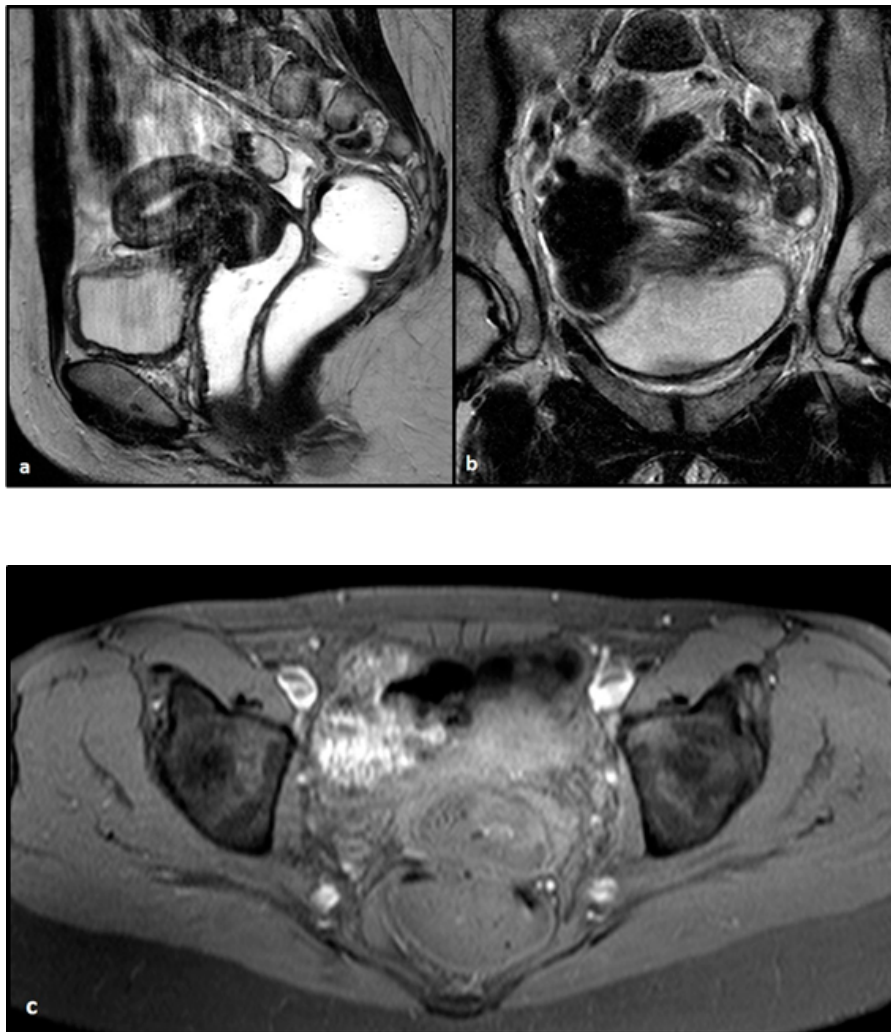
Fig. 2: Imagen anatomopatológica objetivada mediante microscopía óptica:

- a) Mucosa urotelial con lesión exo-endofítica, con corion edematoso y glándulas.
- b) A mayor aumento, cambio del epitelio urotelial habitual por epitelio cilíndrico.
- c) Epitelio de revestimiento cilíndrico ciliado, con células intercaladas.
- d) Dicho epitelio a mayor detalle citológico.



Ante la clínica inespecífica en relación con el ciclo menstrual, la paciente es valorada por ginecología, realizándose resonancia magnética (RM) pélvica con hallazgo de endometriosis profunda además de la endocervicosis ya descrita. Como se puede objetivar en las imágenes, se objetiva la presencia de nódulo endometriósico hipointenso que infiltra la serosa uterina anterior, la plica vesicouterina y, de forma transmural, la cúpula vesical posterosuperior protruyendo hacia la luz vesical, con algún elemento glandular microquístico en el interior (Figura 3).

Fig. 3: RM pélvica: Secuencia sagital (a) y coronal (b) T2SE y transversal T1 supresión grasa (c). a) y b) Nódulo hipointenso de que infiltra la serosa uterina anterior, la plica vesicouterina, y de forma transmural la cúpula vesical posterosuperior protruyendo hacia la luz vesical con algún elemento glandular microquístico en el interior. c) los pequeños elementos glandulares, aparecen brillantes en secuencia T1 por componente glandular hemorrágico.



Al mes de la intervención, la mujer está asintomática. Ante los deseos genésicos de la paciente, que se encuentra en estudio y tratamiento por la unidad de reproducción, se decide posponer el tratamiento de la endometriosis hasta la consecución de la gestación. A los 6 meses del tratamiento, permanece asintomática desde el punto de vista urológico y continúa en seguimiento por ginecología.

Discusión

Se denomina endocervicosis a la presencia de glándulas mucinosas del endocérnix uterino fuera de su localización habitual.⁽³⁾ Se trata de una patología benigna, muy infrecuente, descrita por primera vez en 1943 por Goodall *et al.*, como una lesión con aspecto de masa submucosa infiltrante que se ha descrito que puede aparecer en diversas localizaciones.^(1,2)

La endocervicosis vesical es una entidad excepcional, presentada por primera vez en 1982 por Steele y Byrne,⁽²⁾ y considerada una entidad independiente en 1992 por Clement y Young, quienes describieron masas submucosas de aspecto macroscópico infiltrante localizadas en la cúpula o cara posterior de la vejiga,⁽¹⁻⁴⁾ microscópicamente formadas por la proliferación benigna de glándulas endocervicales mucinosas localizadas profundamente en la pared vesical.

Solamente se ha descrito en el sexo femenino, preferentemente en mujeres en edad fértil, sobre todo en la 3^o o 4^o década de la vida,⁽¹⁻⁵⁾ por lo que se ha relacionado con cambios hormonales.

Su etiología no está claramente demostrada, aunque se cree que se produce por una alteración embriológica en la diferenciación no maligna del sistema mülleriano secundario,

que dará lugar al endometrio, endocérnix y trompas de Falopio.⁽¹⁻³⁾ Esta teoría relaciona a la endocervicosis con otras entidades como la endometriosis o endosalpingiosis, por lo que su aparición conjunta no es excepcional, aunque se considera una entidad clínica distinta a estas.^(3,6) Clement y Young en 1996 acuñaron el término müllerianosis para englobar a estas 3 entidades que hacen referencia a la presencia de tejido normal del endometrio, endosalpinx y endocérnix en localizaciones anormales, sobre todo en la vejiga.^(2,7) Su incidencia se estima en 1-2%, siendo la endocervicosis la más infrecuente de ellas.⁽⁵⁾

Sin embargo, además de la hipótesis mülleriana, no pueden excluirse otras hipótesis ya que también se ha presentado en mujeres de mayor edad, en ocasiones postmenopáusicas, con antecedentes de cirugía ginecológica previa como cesáreas o histerectomías.⁽¹⁻⁵⁾ Aunque no está claramente demostrado, es posible que tras traumatismo de la vejiga durante la disección en dichas cirugías se produzca la implantación del epitelio mülleriano preexistente.⁽⁷⁾

Así como la endometriosis tiene una distribución muy amplia, pudiendo aparecer en toda la pelvis, incluido ovario, vejiga y/o asas intestinales, la distribución de la endocervicosis parece ser más localizada, afectando principalmente a la cara posterior y/o cúpula vesical, que corresponde topográficamente con la cobertura peritoneal de la vejiga y responde particularmente bien a hormonas femeninas.⁽⁷⁾ Sin embargo, también se han descrito casos de endocervicosis en el peritoneo pélvico, cicatrices cutáneas, ganglios linfáticos y/o vagina.^(1,3)

Su presentación clínica suele ser inespecífica, en forma de dolor pélvico o suprapúbico, polaquiuria, frecuencia miccional aumentada, disuria, urgencia o incluso hematuria, que

en ocasiones pueden presentarse de manera cíclica con exacerbaciones coincidiendo con los periodos menstruales.^(1,3-6) También se han descrito puntualmente, aunque menos frecuentemente, otros síntomas como dismenorrea, dispareunia o dolor pélvico crónico.⁽⁷⁾

Las citologías y urocultivos son negativos, y el diagnóstico se realiza mediante ecografía y/o cistoscopia,⁽²⁾ que muestra una lesión mural cubierta de epitelio intacto,⁽⁵⁾ aunque el diagnóstico definitivo es histológico mediante el análisis anatómico-patológico de la muestra. Normalmente se trata de un hallazgo histológico casual objetivado tras exéresis de la lesión sospechosa de tumor vesical.⁽⁵⁾ La RM pélvica puede ser útil para el diagnóstico de esta entidad y/u otras posibles müllerianosis asociadas.^(3,7)

Su presentación vesical es excepcional, pero hay que tenerla en mente a la hora de realizar diagnóstico diferencial con un cáncer vesical, ya que las pruebas de diagnóstico por imagen pueden mostrar en muchas ocasiones un aspecto infiltrante *a priori*. Por tanto, ha de tenerse presente en el diagnóstico diferencial con patologías como el carcinoma de células transicionales o el adenocarcinoma vesical,⁽³⁾ así como cistitis glandularis o remanente uracal.⁽⁴⁾ Asimismo, siempre hay que descartar la presencia de un tumor mucinoso primario.⁽⁴⁾

Dado el aspecto sospechoso de malignidad, en ocasiones se ha tratado mediante resección transuretral, que puede ser suficiente para el control de la enfermedad si el tamaño no es muy grande.^(1,3) La cistectomía parcial se ha realizado en varios casos para conseguir su exéresis completa,⁽³⁻⁵⁾ por lo que estaría indicada sobre todo en casos extensos o tras recurrencia de los síntomas. Algunos autores, como Clement *et al.*, consideran la resección transuretral vesical (RTU-V) completa como el tratamiento

de primera línea para reducir los síntomas, al tratarse de una intervención menos agresiva que causa menor comorbilidad y ser una lesión de naturaleza benigna.^(4,5,8)

Hasta la fecha no se ha descrito ningún caso de recurrencia o transformación maligna a pesar de un seguimiento a largo plazo de unos 14 años,^(3,6) aunque sí se han visto casos de persistencia de síntomas por resección incompleta de la lesión que han precisado de retratamiento quirúrgico mediante RTU-V o cistectomía parcial.⁽⁷⁾

En cuanto al análisis anatomopatológico de la muestra, la endocervicosis es la presencia de glándulas endocervicales ectópicas de origen mülleriano con producción de mucina intracitoplasmática.⁽⁴⁾ Se trata de un diagnóstico difícil de realizar tanto desde el punto de vista clínico como patológico. Al microscopio, se objetiva mucosa vesical cubierta de urotelio con glándulas de morfología irregular en el estroma.⁽⁷⁾

Las lesiones presentan un mayor índice proliferativo que el endocervix normal, pero considerado dentro de los límites de la normalidad.⁽¹⁾ También presentan mayor expresión de receptores HBME-1 (anticuerpo monoclonal que detecta células de mesotelioma), receptores estrogénicos y de progesterona que el tejido endocervical normal, por lo que se sospecha que podría predecir la respuesta a tratamiento hormonal con análogos de GnRH como coadyuvante a la cirugía, aunque sólo se ha visto respuesta ocasional temporal sin describirse claros efectos de este tratamiento, por lo que su uso no está establecido.^(1,3,7)

Conclusiones

La endocervicosis es la presencia de glándulas mucinosas del endocervix uterino fuera de su localización habitual,⁽³⁾ siendo una entidad

benigna e infrecuente que puede presentarse excepcionalmente en la vejiga, formando masas exofíticas en la cara posterior-fondo o cúpula vesical que pueden simular un tumor vesical.⁽¹⁻⁴⁾ Aunque se desconoce su etiología, su presentación está limitada a mujeres, la mayoría en edad fértil,⁽¹⁻³⁾ y en ocasiones asociada a otras entidades como la endometriosis o la endosalpingiosis; aunque también se ha descrito en mujeres posmenopáusicas con antecedente de cesárea o histerectomía previas.⁽¹⁻⁵⁾

Su clínica es inespecífica, en ocasiones presentándose como dolor pélvico o clínica urinaria intermitente relacionada con el ciclo menstrual.^(1,3-6) Se presenta como una masa vesical ya sea por ecografía,⁽²⁾ resonancia magnética (RM) pélvica,^(3,4) y/o cistoscopia,⁽⁵⁾ y ante sospecha de tumor vesical, está indicado realizar exéresis quirúrgica de la misma mediante resección transuretral (RTU-v) o cistectomía parcial.⁽⁷⁾ Se considera la RTU-v como el tratamiento de primera línea al ser menos agresivo y tratarse de una lesión benigna. Sin embargo, se ha descrito algún caso de resección transuretral incompleta que fue inefectiva, persistiendo la lesión, que precisó de exéresis mediante cistectomía parcial. Esta patología presenta un curso clínico benigno, sin haberse objetivado malignidad ni recurrencia de las lesiones completamente extirpadas tras un largo periodo de seguimiento.⁽¹⁾

Su diagnóstico suele ser un hallazgo anatomopatológico incidental tras exéresis de la lesión, objetivando glándulas endocervicales ectópicas con producción de mucina intracitoplasmática que expresan receptores hormonales en mayor cantidad que el tejido ortotópico.^(1,3,7)

Con los datos mencionados, podemos concluir que se ha de tener en mente esta patología en el diagnóstico diferencial de las lesiones

vesicales y confirmar su naturaleza mediante la exéresis quirúrgica y el estudio histológico de la misma.

Referencias

1. **Julié et al.** (2002). Endocervicosis of the Urinary Bladder. Immunohistochemical Comparative Study between a New Case and Normal Uterine Endocervices. *Pathol. Res. Pract.*, 2002, 198: 115-120
2. **Cheah et al.** (2011). Unusual finding of endocervical-like mucinous epithelium in continuity with urothelium in endocervicosis of the urinary bladder. *Diagnostic Pathology*, 2011, 6:56
3. **González-Satué et al.** (2004). Endocervicosis vesical: excepcional causa de masa vesical. *Actas Urol Esp.* (2004) 28 (9): 677-679, 2004
4. **Preusser et al.** (2008). Submucosal endocervicosis of the bladder: An ectopic, glandular structure of Müllerian origin. *Scandinavian Journal of Urology and Nephrology*, 2008; 42: 88_90
5. **Heretis et al.** (2009). Endocervicosis of the Bladder: Report of a Case and Review of the Current Literature. *Int J Clin Exp Pathol* (2009) 2, 91-94
6. **Rodríguez et al.** (1997). Endocervicosis of the bladder: a rare mucinous analogue of endometriosis. *The Journal of Urology*. Vol. 167,1355. April 1997
7. **Habiba et al.** (2018) Müllerianosis, Endocervicosis, and Endosalpingiosis of the Urinary Tract: A Literature Review. *Reproductive Sciences XX(X)*. DOI: 10.1177/1933719118773441
8. **Clement PB, Young RH.** Endocervicosis of the urinary bladder. A report of six cases of a benign mullerian lesión that may mimic adenocarcinoma. *Am J Surg Pathol* 1992;/16:/533.