

# Angioleiomioma lingual: A propósito de un caso

## *Lingual angioleiomyoma: A case report*

I. Peña González<sup>1</sup>, L.M. Junquera Gutiérrez<sup>2</sup>, C. Aguilar Lisset<sup>3</sup>, J.C. De Vicente Rodríguez<sup>4</sup>, P. Villarreal Renedo<sup>2</sup>

**Resumen:** *Introducción.* Los leiomiomas orales son tumores del músculo liso poco frecuentes debido a la escasez de este tejido en la boca. La forma más frecuente es el angioleiomioma. Son tumoraciones generalmente asintomáticas, que pueden malignizar, por lo que está indicada su extirpación. Su diagnóstico es anatomo-patológico siendo importante diferenciarlas de su forma maligna. El tratamiento es quirúrgico y la recidiva inusual.

**Material y método.** Se presenta un caso de angioleiomioma lingual y sus características anatomo-patológicas, relacionando los hallazgos con la literatura existente.

**Discusión.** Los angioleiomiomas linguales son tumoraciones poco frecuentes, generalmente asintomáticas y de fácil acceso quirúrgico. Los hallazgos anatomo-patológicos consisten en una proliferación vascular rodeada de un estroma positivo a la actina muscular lisa específica. Ha de tenerse en cuenta en el diagnóstico diferencial de masas lingüales tales como abscesos, neuromas y tumores de glándulas salivales menores. El tratamiento de elección es quirúrgico y la recidiva inusual.

**Conclusiones.** Los angioleiomiomas linguales son tumores benignos poco frecuentes pero que deben ser tenidos en cuenta en el diagnóstico diferencial de masas lingüales. Es importante diferenciarlos de su forma maligna a través de su estudio anatomo-patológico.

**Palabras clave:** Angioleiomiomas; Lengua.

Recibido: 25.09.07

Aceptado: 14.01.08

1 Médico Residente. Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial.

2 Médico Adjunto. Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial.

3 Médico Residente. Servicio Anatomía Patológica.

4 Jefe de Sección. Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial.  
Hospital Universitario Central de Asturias, Oviedo, España

**Correspondencia:**

Ignacio Peña González

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial.

Hospital Universitario Central de Asturias.

c/ Celestino Villamil s/n, 33006 Oviedo, España

Email: napego\_maxilo@hotmail.com

**Abstract:** *Introduction.* Oral leiomyomas are uncommon smooth muscle tumors due to the scant presence of this tissue in the oral cavity. The most common type is angioleiomyoma. Angioleiomyomas usually are asymptomatic tumors that can become malignant, so surgery is necessary. These tumors have a histopathologic diagnosis and the differential diagnosis from their malignant counterparts is important. Surgery is the treatment of choice and recurrence is rare.

**Material and method.** We report a case of lingual angioleiomyoma, its histopathologic findings, and our literature review.

**Discussion.** Lingual angioleiomyomas are tumors that are uncommon, usually asymptomatic, and easy to access for surgery. Histopathologic findings show intense positive staining to smooth muscle actin. The differential diagnosis is with other lingual masses, such as abscesses, neuromas and minor salivary gland tumors. Surgery is the treatment of choice and recurrence is rare.

**Conclusions.** Lingual angioleiomyomas are uncommon benign tumors to consider in the diagnosis of lingual masses. Malignancy must be excluded by adequate histopathologic study.

**Key words:** Angioleiomyoma; Tongue.

## Introducción

El leiomioma es un tumor benigno del músculo liso cuya localización más típica es el aparato genitourinario femenino y el tracto gastrointestinal, siendo infrecuente en la boca debido a la escasez de este tejido en la misma.<sup>1</sup> La teoría más aceptada para su origen es la propuesta por Stout en 1937,<sup>2</sup> en virtud de la cual estos tumores se desarrollarían a partir de la túnica media de los vasos orales. No obstante, este tipo de tumores podrían provenir del músculo liso del conducto lingual, teoría propuesta por Glas,<sup>3</sup> que sitúa en la papila circunvalada como otro posible origen.

Los leiomiomas orales pueden presentarse a cualquier edad aunque es más frecuente que aparezcan entorno a los 30-59 años de edad, sin que se hayan encontrado diferencias en la incidencia hombre-mujer.<sup>4,5</sup>

Clínicamente, se presentan como masas asintomáticas de pequeño tamaño, bien delimitadas y esféricas.<sup>4-7</sup> La punción aspiración con aguja fina (PAAF) y las pruebas de imagen son inespecíficas, por lo que el diagnóstico se obtiene a través de la biopsia excisional y el estudio anatomo-patológico correspondiente.<sup>6</sup>

El tratamiento de elección es quirúrgico, siendo rara la recurrencia tras la cirugía.<sup>6</sup> En aquellos casos de gran tamaño y estirpe vascular, puede ser beneficioso su embolización previa para disminuir la probabilidad de sangrado durante la intervención.<sup>8</sup>

El propósito del presente trabajo es presentar un nuevo caso de angioleiomioma oral localizado en la lengua y realizar una revisión de la literatura sobre esta patología.

## Caso clínico

Varón de 67 años de edad, sin antecedentes personales de interés, que acude a nuestro servicio para valoración de una tumoración lingual de 6 meses de evolución, asintomática pero de crecimiento progresivo. La masa se situaba en el tercio anterior lingual izquierdo. Presentaba un tamaño aproximado de 5 mm de diámetro mayor, consistencia dura y no estaba adherida a planos profundos. El aspecto de la mucosa lingual situada por encima de ella era normal. No se evidenció, a la palpación, presencia de adenopatías.

Dado el pequeño tamaño de la masa, se decide realizar su biopsia excisional bajo anestesia local. Macroscópicamente, se trataba de una tumoración bien encapsulada y fácilmente extirpable, color blanco marfil (Fig. 1).

El estudio con Hematoxilina-Eosina mostró un tejido caracterizado por la proliferación de vasos de pequeño calibre, de luces redondeadas y paredes gruesas de los que partían haces de células fusiformes acidófilas, que constituían el resto del estroma (Fig. 2).



**Figura 1.** Tumoración bien encapsulada y de fácil acceso quirúrgico.

**Figure 1.** Well-encapsulated tumor that is readily accessible to surgery.

## Introduction

Leiomyomas are benign tumors of the smooth muscle that are most typically located in the feminine genitourinary system and gastrointestinal tract. They are uncommon in the mouth due to the scarcity of smooth muscle in this area.<sup>1</sup> Stout proposed the most widely accepted hypothesis of the origin of angioleiomyomas in 1937.<sup>2</sup> According to this author, these tumors develop from the tunica media of oral blood vessels. However, another possible origin may arise be the smooth muscle of the lingual duct located

in the circumvallate papilla, a hypothesis proposed by Glas.<sup>3</sup>

Oral leiomyomas may occur at any age, although they are more common around 30-59 years of age. There is no difference in the incidence in men and women.<sup>4,5</sup>

Clinically, leiomyomas occur as small, asymptomatic, well-delimited, spherical masses.<sup>4-7</sup> Fine-needle aspiration biopsy (FNAB) and imaging studies yield non-specific results, so the diagnosis is obtained by excisional biopsy and histopathologic study.<sup>6</sup>

The treatment of choice is surgery and the tumor rarely recurs after surgery.<sup>6</sup> In cases of large tumors of vascular origin, previous embolization can help to diminish the probability of bleeding during the intervention.<sup>8</sup>

We report a new case of oral angioleiomyoma located in the tongue and review the literature on this pathology.

## Clinical case

A 67-year-old man without a personal history of interest was referred to the department for evaluation of a lingual tumor for the last 6 months that was asymptomatic but grew progressively. The mass was located in the left anterior third of the tongue. The largest diameter of the tumor was approximately 5 mm and the tumor was of hard consistency and not adhered to deep planes. The lingual mucosa located over the tumor had a normal appearance. Enlarged lymph nodes were not found on palpation.

Excisional biopsy was performed under local anesthesia due to the small size of the mass. On gross inspection, it was a well encapsulated, easily excisable, ivory-white-colored tumor (Fig. 1).

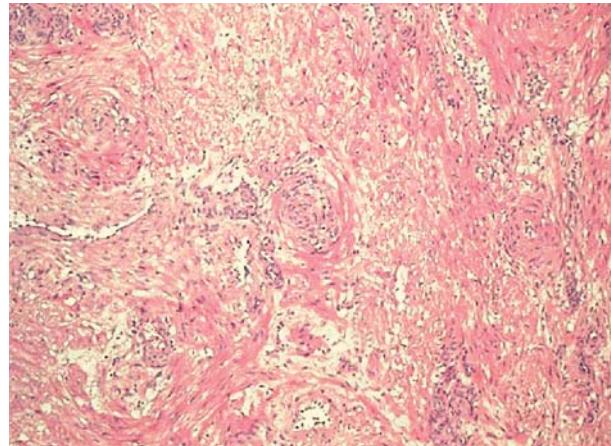
The study with hematoxylin-eosin revealed tissue characterized by proliferation of small-caliber blood vessels with round lumina and thick walls. Acidophilic spindle cells emanat-

Con el fin de establecer qué tipo de células constituyan el estroma tumoral, se realizó un estudio inmunohistoquímico. Primero se emplea actina músculo-común, siendo positiva a la misma y, posteriormente y para filiar la estirpe muscular, se realiza tinción con actina músculo-liso, resultando intensamente positiva a ella (Fig. 3), estableciéndose el diagnóstico de angioleiomioma y descartándose malignidad ante la ausencia de atipias celulares y escaso número de mitosis.

## Discusión

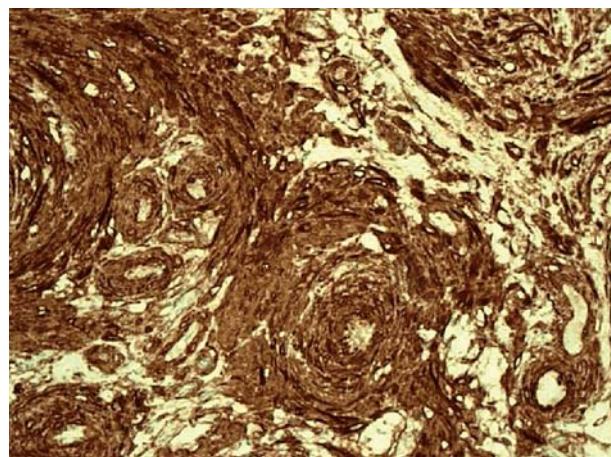
Los tumores de músculo liso son poco frecuentes en la cavidad oral. Farman, en 1975, realizó una revisión de 7748 tumores de músculo liso de todo el cuerpo, encontrando tan sólo un 0,064% en la cavidad oral.<sup>1</sup> Más recientemente, Wang y cols.,<sup>6</sup> realizaron una revisión de 160 casos de leiomiomas, encontrando que sólo el 21% se sitúan en cabeza y cuello, y tan sólo uno era intraoral. En 1969, la Organización Mundial de la Salud divide los leiomiomas en tres subtipos histológicos:<sup>9</sup> leiomiomas sólidos (verdaderos leiomiomas), leiomiomas vasculares (angioleiomiomas-angiomiomas) y leiomiomas epiteliales (leiomyoblastoma). El caso que nos ocupa pertenece al grupo de leiomiomas vasculares. Los angiomiomas son más frecuentes en el tejido subcutáneo de las extremidades, presentándose aquí como nódulos dolorosos.<sup>8</sup> De presentarse un leiomioma en la cavidad oral, el subtipo más frecuente es el angiomioma.<sup>5,10</sup> No obstante, los angiomiomas siguen siendo tumores muy poco comunes en la boca. Así, en una revisión, realizada por Brooks y cols., en 2002,<sup>7</sup> de 76.412 biopsias de la cavidad oral, sólo 12 fueron angiomiomas (0,016%). Hachisuga et al.<sup>11</sup> estudiaron un total de 562 casos de angiomiomas y sólo el 8,5% se localizaba en cabeza y cuello. Los angiomiomas orales se localizan más frecuentemente en mejilla, paladar y lengua,<sup>4</sup> siendo la lengua el 2º lugar en frecuencia.<sup>5</sup> El rango de edad se sitúa entre los 30-59 años, con una incidencia similar en hombres y mujeres.<sup>4,5</sup> Hemos presentado un nuevo caso de angiomioma oral, que se situaba en la lengua de un paciente varón de 67 años, datos que se corresponden con lo anteriormente expuesto.

El origen de estos tumores podría situarse en el músculo liso de la túnica media de los vasos orales,<sup>2,5</sup> aunque no se podría descartar su origen en la papila circunvalada lingual.<sup>3</sup> Para algunos autores, gran parte de los angiomiomas no serían verdaderos tumores



**Figura 2.** (HE, 20x). Vasos de paredes gruesas rodeados de células fusiformes acidófilas.

*Figure 2. (HE, 20x). Blood vessel with thick walls surrounded by acidophilic spindle cells.*



**Figura 3.** Tinción con anticuerpos actina músculo liso específicos. (20x). Intensa positividad.

*Figure 3. Staining with smooth-muscle actin-specific antibodies. (20x). Intense positivity.*

ed from the vessels, constituting the rest of the stroma (Fig. 2). An immunohistochemical study was made to establish the type of cells that constituted the tumoral stroma. Firstly, common muscle actin yielded a positive result. Then, to identify the muscle strain, the tissue was stained with smooth muscle actin, which gave an intensely positive result (Fig. 3). This established the diagnosis of angioleiomyoma and ruled out malignancy in light of the absence of cellular atypias and the scant number of mitoses.

## Discussion

Smooth muscle tumors of the oral cavity are infrequent. Farman,<sup>1</sup> in 1975, reviewed 7748 smooth muscle tumors from locations throughout the body and found only 0.064% in the oral cavity. More recently, Wang et al.<sup>6</sup> reviewed 160 cases of leiomyoma, finding 21% in the head and neck but only one intraoral leiomyoma. In 1969, the World Health Organization divided leiomyomas into three histologic subtypes:<sup>9</sup> solid leiomyomas (true leiomyomas), vascular leiomyomas (angioleiomyomas-angiomyomas), and epithelial leiomyomas (leiomyoblastoma). The case reported here pertained to the vascular leiomyomas group. Angiomyomas occur more frequently in the subcutaneous tissue of the limbs, where they manifested as painful nodes.<sup>8</sup> Among the leiomyomas of the oral cavity, the most frequent subtype is angiomyoma.<sup>5,10</sup> However, angiomyomas continue to be uncommon tumors in the mouth. In a review by Brooks et al.<sup>7</sup> in 2002, of 76412 biopsies of the oral cavity, only 12 were angiomyomas (0.016%). Hachisuga et al.<sup>11</sup> studied a total of 562 cases of angiomyoma, of which only 8.5% were located in the head and neck. Oral angiomyomas are located more frequently in the cheek, palate and tongue,<sup>4</sup> with the tongue being the second most frequent site.<sup>5</sup> The age range was 30 to 59 years and the incidence was similar in men and women.<sup>4,5</sup> We report a new

sino malformaciones vasculares con hiperplasia de células musculares lisas, y establecen la siguiente evolución de las lesiones comenzando por: hemangioma, angioma, leiomioma vascular, leiomioma y leiomioma sólido, siendo, por tanto, el leiomioma vascular un estadio intermedio en esta secuencia.

Clínicamente, estos tumores se presentan como masas de pequeño tamaño (menor de 2 centímetros) asintomáticas.<sup>4-6</sup> En nuestro caso, la tumoración no presentaba síntoma alguno y tenía un tamaño aproximado de 5 milímetros.

El diagnóstico diferencial lo deberemos establecer con:<sup>5,10</sup> absceso, cuerpo extraño, tiroides lingual, hemangioma, linfangioma, hidroma quístico, quistes de retención, papiloma; y con tumores benignos: fibromas, neurofibromas, histiocitoma fibroso, neurilemoma, lipoma, tumor de células granulares (mioblastoma) y tumores glandulares (como el adenoma pleomorfo).

Tanto la PAAF como las pruebas de imagen son inespecíficas, por lo que, para su diagnóstico, se realizará biopsia excisional y estudio anatopatológico.<sup>6</sup> En el caso de los angiomiomas, encontraremos espacios vasculares rodeados de músculo liso.<sup>4,6-8</sup> En la tinción con hematoxilina-eosina, encontramos con una proliferación de vasos de paredes gruesas, rodeados de un estroma de células fusiformes. Al igual que otros autores, creemos que el estudio inmunohistoquímico con actina músculo específica es suficiente para establecer el diagnóstico de angiomioma, no siendo preciso realizar otro tipo de tinciones.<sup>6</sup> En ocasiones, puede resultar difícil distinguir un leiomioma bien diferenciado de un leiomiosarcoma de bajo grado de malignidad.<sup>5,13</sup> Si está localizado en la lengua, es más probable que sea benigno.<sup>5</sup> No obstante, la clave se sitúa en el número de mitosis por campo de gran aumento.<sup>5,13,14</sup> Así pues, si nos encontramos con más de 10 figuras mitóticas por campo de gran aumento (40x), indicaría un comportamiento maligno.<sup>13</sup> Si vemos menos de 2 figuras mitóticas por campo, sería indicativo de buen pronóstico.<sup>14</sup> En nuestro caso, se descartó la malignidad de la lesión basándose en esos principios.

## Conclusiones

El porcentaje de malignización del leiomioma oral es alto comparado con la misma lesión en el tracto genitourinario femenino, situándose entorno al 20%.<sup>1</sup> Por lo tanto, a pesar de ser masas generalmente asintomáticas, es recomendable su exéresis. Al ser tumores encapsulados y bien circunscritos, la cirugía no conlleva ningún problema y es el tratamiento de elección de estas masas.<sup>6,7</sup> Normalmente suelen ser de pequeño tamaño y, como en nuestro caso, se puede realizar la cirugía bajo anestesia local. En el caso de angiomiomas de gran tamaño puede ser beneficioso la embolización previa que disminuya el riesgo de sangrado operatorio.<sup>8</sup> La recurrencia de los angiomiomas es inusual,<sup>6</sup> y no se ha descrito su malignización en la literatura.<sup>7</sup>

## Bibliografía

- Farman AG.: Benign smooth muscle tumors. *S Afr Med J* 1975;49:1333-40. Cited in Farman AG, Kay S. *Oral Surg* 1977;43:402.

*case of oral angiomyoma that was located in the tongue of a 67-year-old male patient, which was described above.*

*The origin of these tumors may be the smooth muscle of the tunica media of oral blood vessels,<sup>2,5</sup> although their origin in the lingual circumvallate papilla cannot be ruled out.<sup>3</sup> For some authors, many angiomyomas are not true tumors but vascular malformations with hyperplasia of the smooth muscle cells. They establish the following evolution of the lesions, beginning with: hemangioma, angioma, vascular leiomyoma, leiomyoma, and solid leiomyoma. Vascular leiomyoma is, therefore, an intermediate stage in this sequence.*

*Clinically, leiomyomas appear as small (less than 2 cm), asymptomatic masses.<sup>4-6</sup> In our case, the tumor did not present any symptom and measured approximately 5 mm.*

*The differential diagnosis has to be established with:<sup>5,10</sup> abscess, foreign body, lingual thyroid, hemangioma, lymphangioma, cystic hygroma, retention cysts, papilloma, and benign tumors, eg, fibroma, neurofibroma, fibrous histiocytoma, neurilemmoma, lipoma, granular cell tumor (myoblastoma), and glandular tumors (eg, pleomorphic adenoma).*

*The results of FNAB and imaging tests are non-specific, which is why excisional biopsy and histopathologic study have to be made for diagnosis.<sup>6</sup> In the case of angiomyomas, we find vascular spaces surrounded by smooth muscle.<sup>4,6-8</sup> Hematoxylin-eosin staining reveals a proliferation of thick-walled vessels surrounded by stroma of spindle cells. We, like other authors, think that immunohistochemical study with muscle-specific actin is sufficient to establish the diagnosis of angiomyoma and that it is unnecessary to perform another type of stain.<sup>6</sup> It sometimes can be difficult to distinguish well differentiated leiomyoma from low-grade malignant leiomiosarcoma.<sup>5,13</sup> If it is located in the tongue, it is more likely to be benign.<sup>5</sup> However, the key is the number of mitoses per high-magnification field.<sup>5,13,14</sup> Therefore, the presence of more than 10 mitotic figures per high-magnification field (40x) would suggest malignant behavior.<sup>13</sup> The presence of fewer than 2 mitotic figures per field is indicative of good prognosis.<sup>14</sup> In our case, the malignancy of the lesion was ruled out based on these principles.*

## Conclusions

*The rate of malignization of oral leiomyoma is high, about 20%, compared with the same lesion in the feminine genitourinary tract.<sup>1</sup> Therefore, although these are generally asymptomatic tumors, exeresis is advisable. As encapsulated, well-circumscribed tumors, surgery does not entail any problem and is the treatment of choice.<sup>6,7</sup> They are usually small tumors and surgery can be performed under local anesthesia, as in our case. In the case of large angiomyomas, previous embolization to reduce the risk of operative bleeding can be beneficial.<sup>8</sup> The recurrence of angiomyomas is unusual<sup>6</sup> and malignization has not been reported in the literature.<sup>7</sup>*

2. Stout AP. Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. *Am J Cancer* 1937;29:435.
3. Glas E. Beitrage zur pathologie der zungengrundtumoren. *Wein Klin Wochenshr* 1905;18:747.
4. Epivatianos A, Trigonidis G., Papanayotou P. Vascular leiomyoma of the oral cavity. *J Oral Maxillofac Surg* 1985;43:377-382.
5. Hatch LW, Hatch GF, Hatch KF, Davis GB, Blanchard DK, Foster RS, Skandalakis JE. Tumors of the oral cavity and pharynx. *World J Surg* 2000;24:395-400.
6. Wang CP, Chang YL, Sheen TS. Vascular leiomyoma of the head and neck. *Laryngoscope* 2004;114:661-5.
7. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94:221-7.
8. Marden FA, Calilao GC, Guzman G., Roy SS. Glossal angiomyoma: imaging findings and endovascular treatment. *Head Neck* 2004;26: 1084-8.
9. Enzinger FM, Lattes R, Torloni H. *Histological Typing of Soft Tissue Tumours*. Geneva: World Health Organisation 1969;30-31.
10. 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. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1994;30B: 1-7.
11. Hachisuga T, Hashimoto H, Enjoji M. Angioleiomyoma: a clinicopathologic reappraisal of 562 cases. *Cancer* 1984;54:126-30.
12. Duhing J, Ayer J. Vascular leiomyoma: A study of sixty-one cases. *Arch Pathol* 1959;68:424.
13. Robbins SL, Corten RI. *Pathologic Basis of Diseases*. (Ed 2) Philadelphia, PA, Saunders 1979;209-10.
14. Gorlin RJ, Godlman HM. *Oral Pathology*. St Louis, MO Mosby 1979;889.