

NOTA CLÍNICA

Leiomioma de vesícula biliar en ausencia de patología del sistema inmune: un diagnóstico inusual

Juan José Segura Sampedro¹, José María Álamo Martínez¹, Jesús Cañete Gómez¹,
Gonzalo Suárez Artacho¹, Joaquín Roberto González Cantón², Miguel Ángel Gómez Bravo¹
y Francisco Javier Padillo Ruiz¹

¹Unidad de Cirugía Hepatobiliopancreática y Trasplante. Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo.

²Servicio de Anatomía Patológica. Hospitales Universitarios Virgen del Rocío. Sevilla

RESUMEN

Las neoplasias mesenquimales de vesícula biliar son una patología muy poco frecuente, concretamente, son muy pocos los casos descritos de leiomioma de vesícula biliar y todos ellos diagnosticados en pacientes con enfermedades del sistema inmunitario.

Se describe por primera vez en la literatura en lengua española el caso de un leiomioma vesicular en una mujer de 23 años sin compromiso inmunitario alguno. La paciente carece de historia de leiomioma uterino o cualquier otra neoplasia. Presenta una historia de epigastrias de evolución. Se formuló un primer diagnóstico guiado por imagen de quiste hidatídico. La vesícula fue extirpada mediante colecistectomía simple. El aspecto macroscópico anormal motivó una biopsia intraoperatoria que fue informada como angiomioma vesicular benigno. El posterior estudio inmunohistoquímico de la pieza arrojó el diagnóstico de leiomioma intramural y endocavitario negativo para VEB y C-Kit / CD-117. La paciente presenta buen estado general y permanece asintomática 15 meses después de la cirugía.

Palabras clave: Leiomioma. Vesícula biliar. Neoplasias mesenquimales. Colecistectomía.

ABSTRACT

Mesenchymal neoplasms of the gallbladder are rare and in particular leiomyomas of the gallbladder have been rarely reported, all of them in patients with immune system disorders.

This is the first report in Spanish of a 23-year-old female patient with a gallbladder leiomyoma without associated immunodeficiency. The patient lacks a previous history of uterine leiomyoma or any other form of neoplasm. She refers several episodes of epigastralgia. A hydatid cyst led to an initial diagnosis and the gallbladder was removed by means of simple cholecystectomy. The abnormal macroscopic aspect of the sample prompted intraoperative biopsy which revealed a benign gallbladder angiomyoma. Subsequent immunohistochemical analysis of the resected sample yielded the diagnosis of intramural endocavitary leiomyoma negative for EBV and C-kit / CD-117. The patient has good general condition and remains asymptomatic 15 months after surgery.

Key words: Leiomyoma. Gallbladder. Mesenchymal neoplasm. Cholecystectomy.

CASO CLÍNICO

Mujer de 23 años estudiada por episodios de epigastria de 4 ó 5 meses de evolución sin relación con la ingesta que mejoran tras emesis. Como antecedentes personales de relevancia destaca el consumo de anticonceptivos orales durante 3 años. En la analítica se observa tan sólo, leucocitos en $3.570 \times 10^9/l$, Hb 115 g/l con VCM de 78 fl. Resto en límites normales. Entre episodios se encuentra asintomática con hábito intestinal normal sin productos patológicos.

En radiografía simple de abdomen se objetivan imágenes heterogéneas de densidad calcio de 4-5 cm proyectadas sobre flexura hepática del colon. La ecografía abdominal objetiva barro biliar y adyacente a la vesícula una imagen de 45 mm, heterogénea con áreas hiperecogénicas compatible con el diagnóstico de quiste hidatídico. A pesar de referir convivencia continuada con perros en un área endémica de

Segura Sampedro JJ, Álamo Martínez JM, Cañete Gómez J, Suárez Artacho G, González Cantón JR, Gómez Bravo MÁ, Padillo Ruiz FJ. Leiomioma de vesícula biliar en ausencia de patología del sistema inmune: un diagnóstico inusual. *Rev Esp Enferm Dig* 2012;104:381-383.

Recibido: 02-01-2012
Aceptado: 22-03-2012

Correspondencia: Juan J. Segura Sampedro. Unidad de Cirugía Hepatobiliopancreática y Trasplante. Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo. Hospitales Universitarios Virgen del Rocío. Avenida Manuel Siurot, s/n. 41013 Sevilla
e-mail: segusamjj@gmail.com

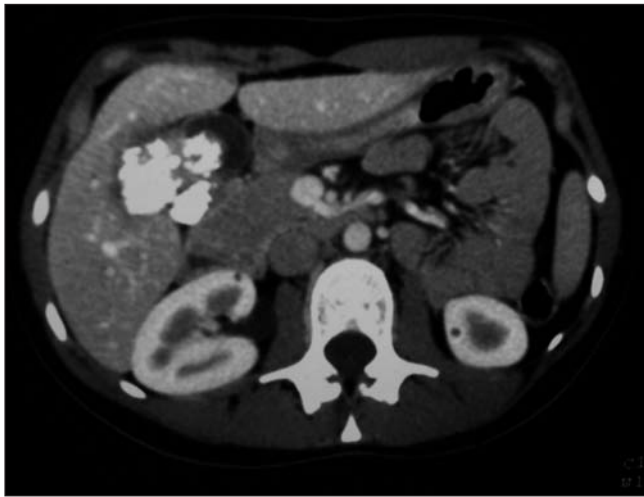


Fig. 1. Imagen en TAC objetivándose estructuras de densidad calcio en vesícula biliar con posible infiltración de parénquima hepático compatibles con quiste hidatídico.

hidatidosis como es España (1,2), y orientar inicialmente el diagnóstico hacia esta patología, la serología para hidatidosis resulta negativa. En la TAC de abdomen (Fig. 1) se objetiva hepatomegalia con LOE parcialmente calcificada en segmento V de 50 mm y morfología redondeada con bordes lobulados e imágenes redondeadas de menor tamaño en periferia. La imagen es compatible con quiste hidatídico sin descartar en su diagnóstico diferencial la posibilidad de hemangioma parcialmente calcificado. La imagen de la vesícula es de numerosas microlitiasis sin signos inflamatorios. Se objetiva del mismo modo en la TAC un hemangioma de 31 mm en segmento IV así como quistes corticales en ambos riñones.

Se programa colecistectomía más quistoperiquistectomía con diagnóstico de presunción de quiste hidatídico más colicitiasis. Se realiza abordaje mediante laparotomía subcostal derecha. Se objetiva vesícula biliar con tumoración intravesicular de consistencia pétreo que no infiltra parénquima hepático (Fig. 2), sin LOE en segmento V. Mediante biopsia intraoperatoria de la masa se diagnostica como angiomioma vesicular benigno, por lo que se procede a realizar colecistectomía simple, que incluye la totalidad de la masa tumoral. El postoperatorio fue favorable, transcurriendo sin incidencias.

El posterior estudio anatomopatológico describe masa sólida, de consistencia elástica y crecimiento expansivo que respeta mucosa y serosa císticas. La histología y el estudio inmunohistoquímico concluyeron el diagnóstico de leiomioma intramural y endocavitario con calcificaciones y osificación distrófica, de carácter benigno sin infiltrar parénquima hepático. La muestra fue negativa para VEB y C-Kit / CD-117 (Fig. 3).

En la actualidad, la paciente se encuentra asintomática, tras realización de ecografía abdominal no muestra recidiva de la enfermedad ni otras alteraciones 15 meses después.

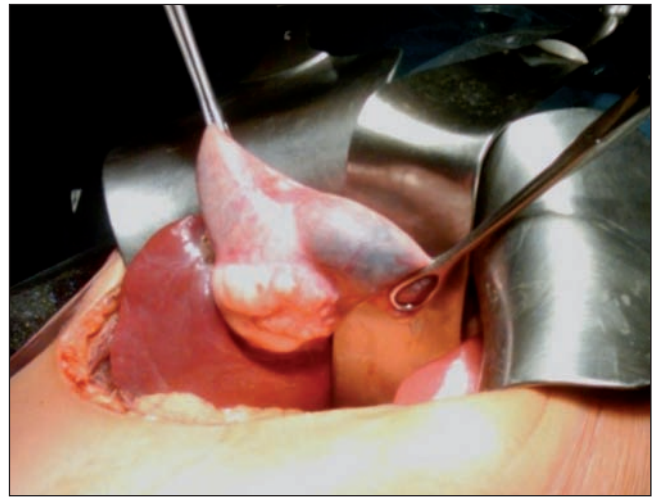


Fig. 2. Laparotomía subcostal derecha. Hallazgo de vesícula biliar con tumoración de consistencia dura y elástica que no infiltra parénquima hepático sin LOE en segmento V.

DISCUSIÓN

Los leiomiomas son tumores benignos del músculo liso que asientan en su mayoría sobre tracto genital femenino (95%). No obstante, pueden desarrollarse allá donde existan fibras musculares lisas. En casos en que la lesión aparece de forma solitaria, su pronóstico es excelente, especialmente si se logra la exéresis completa (3).

Hasta el momento sólo se ha descrito en la literatura inglesa un caso de leiomioma vesicular solitario en estudios previos de neoplasias benignas de vesícula (4,5), y sólo 3 casos en los que una leiomiomatosis sistémica en el contexto de infección por virus de Epstein Barr –asociado a inmunodeficiencia por VIH (6), inmunodeficiencia combinada severa (7), síndrome de Wiskot-Aldrich (8)– afecte a vesícula biliar. En estos casos, la afectación de la vesícula fue multifocal, además de que otros órganos también estaban afectados. En el caso presentado la afectación vesicular es única y unifocal. Respecto a la toma de anticonceptivos orales, el estudio WHO (9) concluyó que no existe relación entre la toma de anticonceptivos orales y el desarrollo de cáncer de vesícula biliar.

La frecuencia de los tumores mesenquimales benignos de vesícula sigue siendo desconocida. Entre las estirpes histológicas descritas en tumores benignos de vesícula se encuentran paragangliomas, neurofibromas, pólipos, GIST y otras lesiones, todas ellas de carácter infrecuente (10). La incidencia de sarcomas de vesícula biliar se estima alrededor del 2% (11). El diagnóstico diferencial del leiomioma vesicular incluye, leiomiosarcoma, tumores estromales extra-gastrointestinales y otros tumores mesenquimales (12-15). Es necesario el estudio del tejido mediante biopsia (generalmente tras realizar colecistectomía) para así establecer el diagnóstico definitivo y excluir así la posibilidad de leiomiomasarcoma y otros sarcomas. La amplia inmunoexpresión

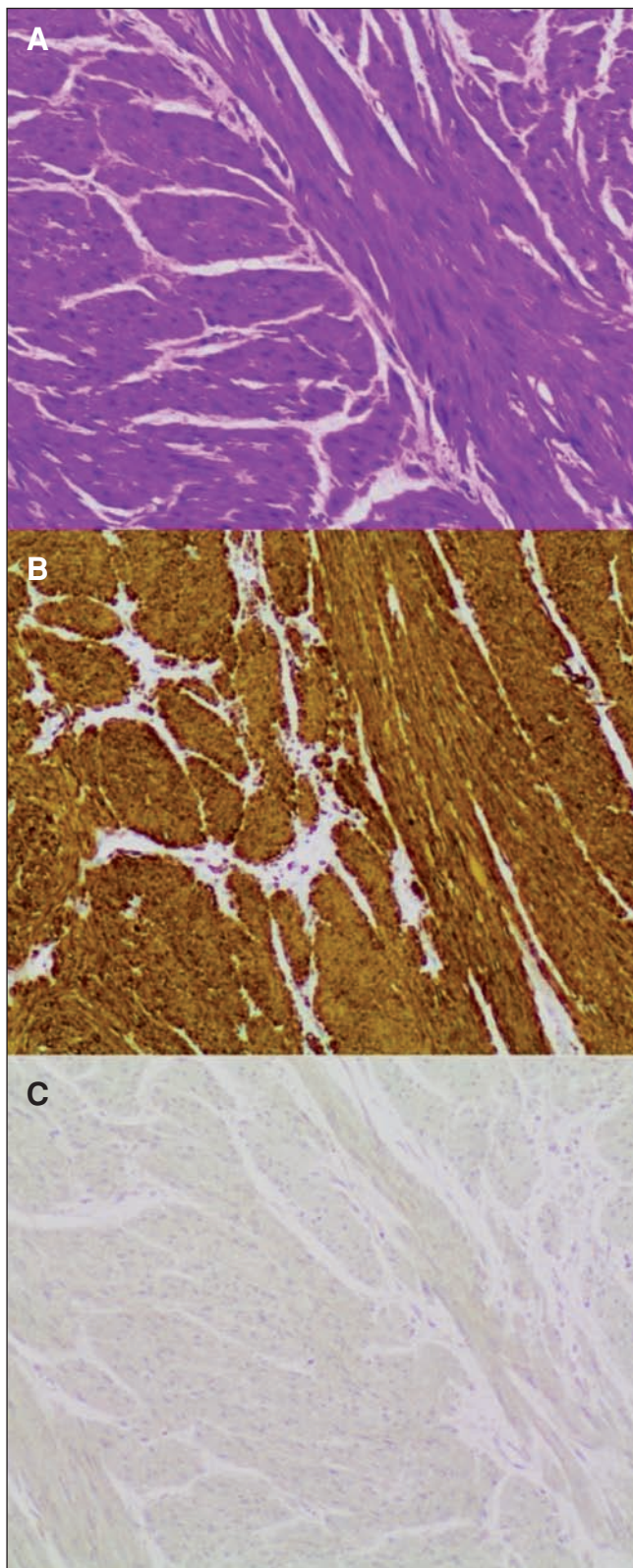


Fig. 3. Patrón fascicular de fibras musculares lisas, sin atipia y práctica ausencia de figuras mitóticas (A), con fuerte inmunoexpresión de actina de músculo liso (B) y ausencia de inmunoexpresión de CD117 (C), lo que confirma carácter leiomiomatoso de la lesión en lugar de GIST de vía biliar extrahepática.

de actina de músculo liso y ausencia de inmunoexpresión de CD-117 confirma el carácter leiomiomatoso de la lesión en lugar de GIST de la vía biliar extrahepática.

Los tumores de músculo liso asociados a VEB (virus de Epstein-Barr) representan otra entidad patológica a descartar en el diagnóstico diferencial de tumores de músculo liso en vesícula. Al contrario que el caso que nos ocupa estos casos suelen asociarse a inmunodeficiencias y afectar a múltiples órganos con varios focos.

Por tanto, el leiomioma debería ser tenido en cuenta en el diagnóstico diferencial de los tumores de vesícula biliar, no sólo en pacientes inmunodeprimidos, sino también en pacientes con función inmune normal.

En casos de leiomioma en vesícula biliar, la colecistectomía laparoscópica habría de ser un tratamiento efectivo y suficiente estando indicada previa confirmación histológica (16).

BIBLIOGRAFÍA

1. Benner C, Carabin H, Sánchez-Serrano LP, Budke CM, Carmena D. Analysis of the economic impact of cystic echinococcosis in Spain. *Bull World Health Organ* 2010;88:49-57.
2. Hidalgo M, Ferrero E, Perea J, Hidalgo A. Liver hydatidosis in the present decade. *Rev Esp Enferm Dig* 2011;103:445-7.
3. Kumar V, Abbas AK, Fausto N, et al. Robbins y Cetran. *Patología Estructural y Funcional*. 7ª ed. España: Elsevier España; 2005.
4. Wachter DL, Büttner MJ, Grimm K, Hartmann A, Agaimy A. Leiomyoma of the gallbladder: a case report with review of the literature and discussion of the differential diagnosis. *J Clin Pathol* 2010;63:177-9.
5. Christensen AH, Ishak KG. Benign tumors and pseudotumors of the gallbladder. Report of 180 cases. *Arch Pathol* 1970;90:423-32.
6. Toma P, Loy A, Pastorino C, Derchi LE. Leiomyomas of the gallbladder and splenic calcifications in an HIV-infected child. *Pediatr Radiol* 1997;27:92-4.
7. Monforte-Muñoz H, Kapoor N, Saavedra JA. Epstein-Barr virus-associated leiomyomatosis and posttransplant lymphoproliferative disorder in a child with severe combined immunodeficiency: case report and review of the literature. *Pediatr Dev Pathol* 2003;6:449-57.
8. Huff D, Lischner H, Go H, deLeon GA. Unusual tumors in two boys with Wiskott-Aldrich-like syndrome. *Lab Invest* 1979;40:305.
9. Combined oral contraceptives and gallbladder cancer. The WHO Collaborative Study of Neoplasia and Steroid Contraceptives. *Int J Epidemiol* 1989;18:309-14.
10. Albores-Saavedra J, Henson D, Klimstra D. Tumors of the gallbladder, extrahepatic bile ducts, and ampulla of Vater. In: Rosai J, Sobin LH, editors. *Atlas of tumor pathology*. Three-edition series. Fascicle 27. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 2000.
11. Duffy A, Capanu M, Abou-Alfa GK, Huitzil D, Jarnagin W, Fong Y, et al. Gallbladder cancer (GBC): 10-year experience at Memorial Sloan-Kettering Cancer Centre (MSKCC). *J Surg Oncol* 2008;98:485-9.
12. Al-Daraji WI, Makhlof HR, Miettinen M, Montgomery EA, Goodman ZD, Marwaha JS, et al. Primary gallbladder sarcoma: a clinicopathologic study of 15 cases, heterogenous sarcomas with poor outcome, except pediatric botryoid rhabdomyosarcoma. *Am J Surg Pathol* 2009;33:826-34.
13. Ortiz-Hidalgo C, de Leon Bojorge B, Albores-Saavedra J. Stromal tumor of the gallbladder with phenotype of interstitial cells of Cajal: a previously unrecognized neoplasm. *Am J Surg Pathol* 2000;24:1420-3.
14. Mendoza-Marin M, Hoang MP, Albores-Saavedra J. Malignant stromal tumor of the gallbladder with interstitial cells of Caja phenotype. *Arch Pathol Lab Med* 2002;126:481-3.
15. Al-Daraji WI, Prescott RJ, Al-Mahmoud RM, Husain EA, Haider SA. Cytological findings in primary GIST of the gallbladder. *Cytopathology* 2009;20:332-5.
16. Palade R, Grigoriu M, Voiculescu D. Gallbladder leiomyoma. *Chirurgia (Bucur)* 2006;101:415-8.