



Leiomomatosis benigna metastatizante en la pos-menopausia

Pos-menopause benign metastatic leiomyomatosis

Leiomomatose metastática benigna pós-menopausa



María Belén Ginetti¹, Pablo Oyhamburu², Martín Bosio³, Fernando Di Tullio⁴.

DATOS DE AUTORES

1. Hospital Británico de Buenos Aires. Centro de Medicina Respiratoria; Argentina. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3584-3388>. Correo de contacto: ginettibelen@gmail.com.
2. Hospital Británico de Buenos Aires. Centro de Medicina Respiratoria; Argentina. ORCID: <https://orcid.org/0009-0005-3071-7680>.
3. Hospital Británico de Buenos Aires. Centro de Medicina Respiratoria; Argentina. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8402-0778>.
4. Hospital Británico de Buenos Aires. Centro de Medicina Respiratoria; Argentina. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7852-9276>.

Recibido: 2024-05-10 Aceptado: 2024-09-27

 DOI: <http://dx.doi.org/10.31053/1853.0605.v82.n1.44999>

 <https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>

©Universidad Nacional de Córdoba



Leiomomatosis benigna metastatizante en la pos-menopausia

CONCEPTOS CLAVE:

Qué se sabe sobre el tema.

La LMB es una condición poco común caracterizada por la diseminación de leiomiomas a sitios extrauterinos. Su presentación atípica en mujeres postmenopáusicas destaca la importancia del diagnóstico diferencial en lesiones pulmonares. Los síntomas pueden variar desde asintomáticos hasta leves, complicando su detección temprana. El manejo multidisciplinario (incluyendo hormonal o resección quirúrgica) es esencial.

Qué aporta este trabajo.

Este caso de LMB pulmonar en una paciente postmenopáusica ofrece valiosa contribución al resaltar la importancia del reconocimiento temprano y el manejo adecuado de esta entidad poco común. Además de ilustrar un diagnóstico desafiante, proporciona evidencia clínica significativa sobre la presentación atípica de leiomiomas, dada su baja frecuencia en el contexto postmenopáusico.

Divulgación

desarrolló leiomiomas benignos en los pulmones, un fenómeno atípico que suele asociarse más comúnmente con mujeres en edad fértil y antecedentes de leiomiomas uterinos. Destaca la importancia de la identificación temprana de esta entidad, dado su bajo índice de incidencia en mujeres postmenopáusicas, y resalta la necesidad de una evaluación multidisciplinaria para su manejo óptimo. El artículo enfatiza cómo el tratamiento debe adaptarse según la sintomatología y la progresión de la enfermedad, contribuyendo así a una mayor comprensión y conciencia de esta rara manifestación clínica.



Leiomiotosis benigna metastatizante en la pos-menopausia

Resumen

Palabras clave:

leiomiomatosis;
metástasis de la
neoplasia; lesión
pulmonar.

La leiomiotosis benigna metastatizante (LBM) es una rara entidad caracterizada por lesiones de localización extrauterina con comportamiento metastásico en pacientes con antecedentes de leiomiomas uterinos. Presentamos el caso de una mujer de 52 años con historia de histerectomía postparto por mioma necrosado, quien consultó por tos y dolor torácico derecho. La tomografía computada reveló múltiples nódulos y masas pulmonares bilaterales con realce heterogéneo con contraste. El análisis anatomo-patológico demostró tumoraciones de músculo liso con expresión de receptores hormonales y bajo índice mitótico. El tratamiento con inhibidor de la aromatasa (anastrozol) resultó en una significativa disminución de las lesiones



Pos-menopause benign metastatic leiomyomatosis

Abstract

Keywords:

leiomyomatosis;
neoplasm
metastasis; lung
injury.

Benign metastasizing leiomyomatosis (BML) is a rare condition characterized by extrauterine lesions with metastatic behavior in patients with a history of uterine leiomyomas. We present the case of a 52-year-old woman with a history of postpartum hysterectomy for necrotic myoma, who presented with cough and right thoracic pain. Computed tomography revealed multiple bilateral pulmonary nodules and masses with heterogeneous enhancement with contrast. Pathological analysis demonstrated smooth muscle tumors with hormone receptor expression and a low mitotic index. Treatment with an aromatase inhibitor (anastrozole) resulted in a significant decrease in the lesions.



Leiomiomatose metastática benigna pós-menopausa

Resumo

Palavras-chave:

leiomiomatose;
metástase
neoplásica; lesão
pulmonar.

A leiomiomatose benigna metastizante (LBM) é uma entidade rara caracterizada por lesões de localização extrauterina com comportamento metastático em pacientes com histórico de leiomiomas uterinos. Apresentamos o caso de uma mulher de 52 anos com história de histerectomia pós-parto por mioma necrosado, que procurou atendimento médico devido a tosse e dor torácica direita. A tomografia computadorizada revelou múltiplos nódulos e massas pulmonares bilaterais com realce heterogêneo com contraste. A análise anatomo-patológica demonstrou tumores de músculo liso com expressão de receptores hormonais e baixo índice mitótico. O tratamento com inibidor de aromatase (anastrozol) resultou em uma diminuição significativa das lesões.

Introducción

El término Leiomioma metastásico benigno (LMB), fue introducido en 1939 por Steiner⁽¹⁾. Desde entonces, se han descrito aproximadamente 150 casos en la literatura⁽²⁾, siendo en su mayoría mujeres en edad fértil con antecedentes de leiomiomas uterinos⁽³⁾. La latencia entre el diagnóstico de leiomioma uterino y el descubrimiento de la LMB varía entre 3 y 30 años,

con una mediana de 14.9 años⁽⁴⁾. Su presentación clínica y radiológica puede simular metástasis de neoplasias malignas, lo que subraya la importancia del reconocimiento precoz. Presentamos un caso de LBM pulmonar en una paciente postmenopáusica, junto con una revisión de la literatura para destacar su manejo y pronóstico.

Presentación del caso

Femenina de 52 años, con antecedente de histerectomía postparto a sus 30 años por mioma necrosado. Consultó por tos y dolor en hemitórax derecho. Al examen físico evidenciaba hipoventilación generalizada y saturación de 97% al aire ambiente. En la tomografía computada (TC), Figura 1, se visualizaron múltiples nódulos y masas

pulmonares bilaterales de distribución difusa y con realce heterogéneo con contraste. Las mayores median 65 mm en lóbulo inferior derecho y destacaba la del segmento posterior del lóbulo superior derecho, la cual se encontraba cavitada.

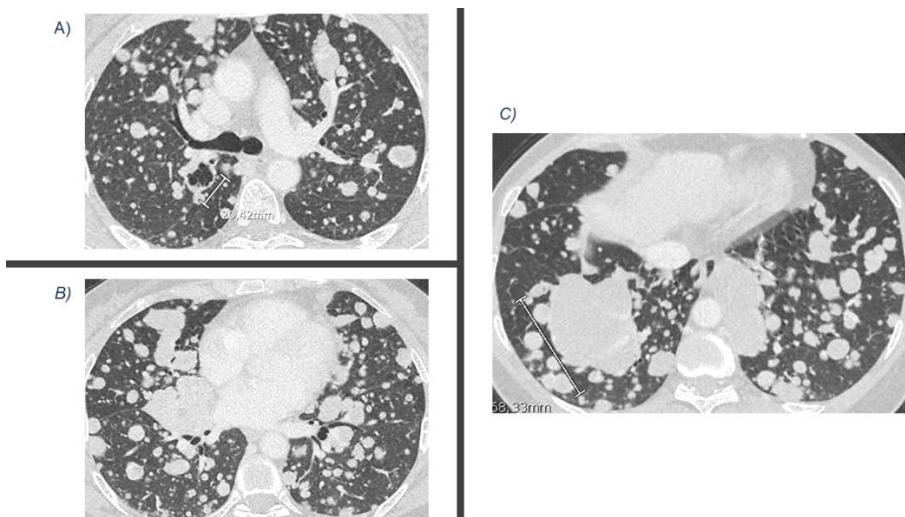


Figura N° 1. Nódulos y masas pulmonares bilaterales. A) Nódulo cavitado de 20mm. B) Imágenes difusas y bilaterales. C) Masa en lóbulo inferior derecho.



Se realizó punción-biopsia percutánea guiada por TC, a partir de la cual no se logró establecer un diagnóstico etiológico, por lo que se realiza videotoracoscopia con resección de nódulos en lóbulo superior e inferior derecho.

El análisis anatomo-patológico demostró tumoraciones de músculo liso con positividad para

receptores hormonales y bajo índice mitótico (Ki 67: Fracción proliferativa del 2%). El cuadro morfológico e inmunofenotipo fue compatible con leiomiomatosis pulmonar múltiple (Figura 2-3). La paciente fue tratada con un inhibidor de la aromatasa (anastrozol) con disminución en número y tamaño de las lesiones en el seguimiento a 6 meses.

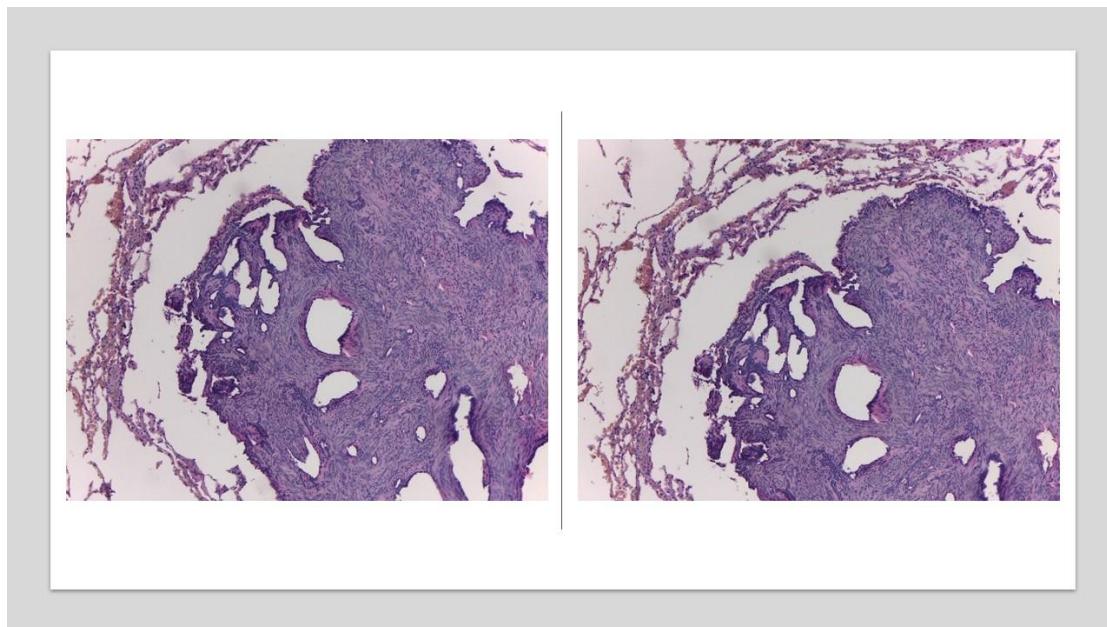


Figura N° 2. Tinción hematoxilina - eosina.

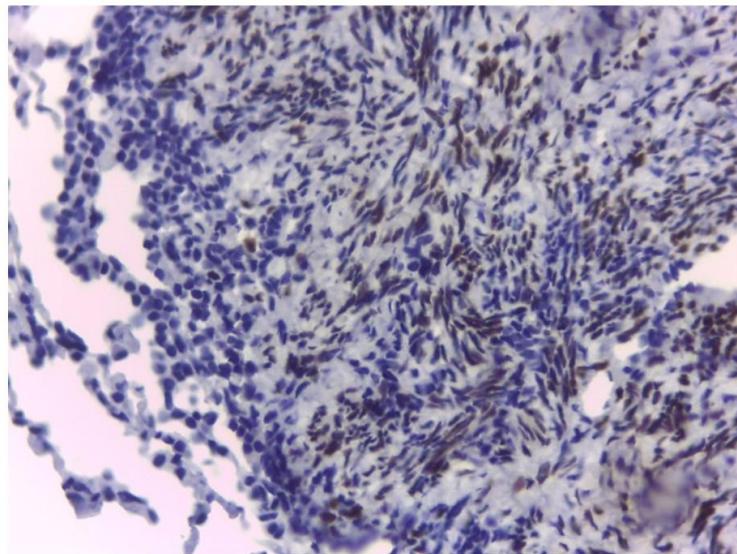


Figura N° 3. Positividad focal para estrógenos.

Discusión

El leiomioma uterino es el tumor benigno más frecuente en mujeres en edad reproductiva, sin embargo, su presentación extrauterina es excepcional. Puede manifestarse como leiomioma benigno metastatizante, leiomiomatosis peritoneal diseminada y leiomioma de crecimiento retroperitoneal⁽²⁾.

La existencia de un leiomioma uterino sincrónico puede sugerir una LBM. Nuestra paciente tuvo una presentación metacrónica que supuso un reto diagnóstico.

Aunque son aún motivo de controversia, los mecanismos patogénicos propuestos incluyen; proliferación *in situ* de músculo liso hormonosensible y metástasis vascular posiblemente a través de émbolos de un leiomioma uterino⁽⁴⁾. La teoría más aceptada sugiere que ambas enfermedades (leiomiomas uterinos y pulmonares) son

monoclonales^(5,6). Se han notificado casos en la postmenopausia, lo que implica que factores extra hormonales podrían estar involucrados en la patogenia.

La LBM afecta con mayor frecuencia los pulmones, mientras que corazón, cerebro, ganglios linfáticos, hueso y piel se ven comprometidos con menor frecuencia⁽⁷⁾. Las metástasis pulmonares suelen ser asintomáticas, con una progresión clínica silente y se detectan mediante exámenes radiológicos de tórax de rutina, incluso años después de la histerectomía^(2,3,8).

La apariencia radiológica de los nódulos pulmonares varía desde lesiones subcentimétricas solitarias hasta lesiones múltiples que imitan metástasis pulmonares de tumores malignos, y realzan de forma homogénea luego de la administración de contraste. Ocasionalmente se



produce la cavitación y calcificación de las lesiones y rara vez puede acompañarse de neumotórax^(2,9). Las imágenes no son suficientemente específicas para realizar un diagnóstico definitivo de LBM.

La histopatología presenta características de un tumor de músculo liso bien diferenciado con células fusiformes dispuestas en fascículos cruzados o en un patrón difuso. Las células tumorales tienen un aspecto benigno sin atipia, mitosis o necrosis⁽⁴⁾, y se requiere el análisis inmunohistoquímico para confirmar la expresión de receptores hormonales e índice mitótico mediante Ki-67. Su bajo índice mitótico nos permitió diferenciarlo del

leiomirosarcoma metastásico de útero, tumor fibroso de pulmón solitario u otros tumores extrauterinos de músculo liso que carecen de receptores hormonales.

El tratamiento debe individualizarse de acuerdo con el comportamiento clínico. En pacientes asintomáticos sería suficiente la expectación y observación. Por el contrario, lesiones que producen síntomas o evidencian progresión son subsidiarios de tratamiento hormonal. La resección quirúrgica podría indicarse en casos donde la potencialidad maligna no puede determinarse^(3,10).

Conclusión

La LBM es una entidad poco frecuente que puede simular metástasis malignas. El diagnóstico preciso y el manejo multidisciplinario son esenciales para mejorar los resultados clínicos. Este caso destaca la

importancia de considerar la LBM en el diagnóstico diferencial de lesiones pulmonares en pacientes postmenopáusicas con antecedentes de leiomiomas uterinos.

Bibliografía

1. Steiner PE. Metastasizing fibroleiomyoma of the uterus: Report of a case and review of the literature. *Am J Pathol*. 1939 Jan;15(1):89-110.7.
2. Fasih N, Prasad Shanbhogue AK, Macdonald DB, Fraser-Hill MA, Papadatos D, Kielar AZ, Doherty GP, Walsh C, McInnes M, Atri M. Leiomyomas beyond the uterus: unusual locations, rare manifestations. *Radiographics*. 2008 Nov-Dec;28(7):1931-48. doi: 10.1148/radiographics.2871071931.
3. Säynäjäkängas O, Maiche AG, Liakka KA. Multiple progressive pulmonary leiomyomatous metastases treated with tamoxifen--a case report with a review of the literature. *Acta Oncol*. 2004;43(1):113-4. doi: 10.1080/02841860310020159.
4. Kayser K, Zink S, Schneider T, Dienemann H, André S, Kaltner H, Schüring MP, Zick Y, Gabius HJ. Benign metastasizing leiomyoma of the uterus:



- documentation of clinical, immunohistochemical and lectin-histochemical data of ten cases. *Virchows Arch.* 2000 Sep;437(3):284-92. doi: 10.1007/s004280000207.
5. Moon H, Park SJ, Lee HB, Kim SR, Choe YH, Chung MJ, Jin GY, Lee YC. Pulmonary benign metastasizing leiomyoma in a postmenopausal woman. *Am J Med Sci.* 2009 Jul;338(1):72-4. doi: 10.1097/MAJ.0b013e31819c7160.
6. Sato S, Maekawa R, Yamagata Y, Tamura I, Lee L, Okada M, Jozaki K, Asada H, Tamura H, Sugino N. Identification of uterine leiomyoma-specific marker genes based on DNA methylation and their clinical application. *Sci Rep.* 2016 Aug 8;6:30652. doi: 10.1038/srep30652
7. Nucci MR, Drapkin R, Dal Cin P, Fletcher CD, Fletcher JA. Distinctive cytogenetic profile in benign metastasizing leiomyoma: pathogenetic implications. *Am J Surg Pathol.* 2007 May;31(5):737-43. doi: 10.1097/01.pas.0000213414.15633.4e.
8. Goyle KK, Moore DF Jr, Garrett C, Goyle V. Benign metastasizing leiomyomatosis: case report and review. *Am J Clin Oncol.* 2003 Oct;26(5):473-6. doi: 10.1097/01.coc.0000037737.78080.E3
9. Miller J, Shoni M, Siegert C, Lebenthal A, Godleski J, McNamee C. Benign Metastasizing Leiomyomas to the Lungs: An Institutional Case Series and a Review of the Recent Literature. *Ann Thorac Surg.* 2016 Jan;101(1):253-8. doi: 10.1016/j.athoracsur.2015.05.107.
10. Silva I, Tomé V, Oliveira J. Benign metastasizing leiomyoma: a progressive disease despite chemical and surgical castration. *BMJ Case Rep.* 2012 Mar 27;2012:bcr0120125505. doi: 10.1136/bcr.01.2012.5505.

Limitaciones de responsabilidad:

La responsabilidad del trabajo es exclusivamente de quienes colaboraron en la elaboración del mismo.

Conflictos de interés:

Ninguno.

Fuentes de apoyo:

La presente investigación no contó con fuentes de financiación.

Originalidad:

Este artículo es original y no ha sido enviado para su publicación a otro medio de difusión científica en forma completa ni parcialmente.

Cesión de derechos:

Quienes participaron en la elaboración de este artículo, ceden los derechos de autor a la Universidad Nacional de Córdoba para publicar en la Revista de la Facultad de Ciencias Médicas de Córdoba y realizar las traducciones necesarias al idioma inglés.



Contribución de los autores:

Quienes participaron en la elaboración de este artículo, han trabajado en la concepción del diseño, recolección de la información y elaboración del manuscrito, haciéndose públicamente responsables de su contenido y aprobando su versión final.