

Fajardo-Bernal, Luisa M.; Acosta-Forero, Jinneth; Ricaurte-Guerrero, Orlando
TUMOR ADENOMATOIDE DEL TRACTO GENITAL FEMENINO. INFORME DE DOS CASOS DE
CUERPO UTERINO Y OVARIO, Y REVISIÓN DE LA LITERATURA
Revista Colombiana de Obstetricia y Ginecología, vol. 60, núm. 1, 2009, pp. 83-88
Federación Colombiana de Asociaciones de Obstetricia y Ginecología
Bogotá, Colombia

Disponible en: <http://www.redalyc.org/articulo.oa?id=195214329012>



TUMOR ADENOMATOIDE DEL TRACTO GENITAL FEMENINO. INFORME DE DOS CASOS DE CUERPO UTERINO Y OVARIO, Y REVISIÓN DE LA LITERATURA

Adenomatoid tumour of the female genital tract. A report of two cases located in the uterine body and ovary and review of the pertinent literature

Luisa M. Fajardo-Bernal, M.D.*, Jinneth Acosta-Forero, M.D., Orlando Ricaurte-Guerrero, M.D.****

Recibido: agosto 5/08 - Aceptado: febrero 12/09

RESUMEN

Objetivo: informar dos casos de tumor adenomatoide (TA) del tracto genital femenino y efectuar una revisión de la literatura, con énfasis en sus aspectos histopatológicos y diagnóstico diferencial.

Presentación de los casos: se informan dos casos de TA del tracto genital femenino, diagnosticados mediante estudios histológicos y de inmunohistoquímica de piezas quirúrgicas. El primero corresponde a una paciente de 39 años que consultó por hemorragia uterina, a quien se le realizó diagnóstico clínico y ecográfico de miomatosis uterina, para el cual se le practicó histerectomía y cuyo estudio patológico demostró un tumor adenomatoide del cuerpo uterino. El segundo caso se presentó en una paciente de 26 años con masa de ovario izquierdo, cuyo material histológico fue remitido para consulta con diagnóstico inicial de tumor de seno endodérmico.

Discusión: el TA es un tumor benigno de origen mesotelial, infrecuente en el tracto genital femenino, cuyo tratamiento sólo requiere cirugía conservadora.

Su diagnóstico diferencial incluye tumores malignos primarios y metastásicos, tanto del cuerpo uterino como del ovario, que de acuerdo con su estado clínico, requieren para su manejo cirugía oncológica y quimioterapia y/o radioterapia complementarias.

Palabras clave: tumor adenomatoide, neoplasias de los genitales femeninos, diagnóstico diferencial, patología, inmunohistoquímica.

SUMMARY

Objective: reporting two cases of adenomatoid tumour (AT) of the female genital tract and to reviewing the pertinent literature, emphasising histopathological features and differential diagnosis.

Cases report: two cases of AT of the female genital tract are reported; they were diagnosed by histological and immunohistochemistry studies of surgical specimens. The first case concerned a 39-year-old woman who consulted for uterine bleeding; uterine myomatosis was suggested by clinical and ultrasonographic diagnosis, but the pathological study revealed an AT. The second case concerned a 26-year-old woman with a left ovarian mass. Oofoorectomy initially diagnosed the histological material as endodermal sinus tumour and it was then sent for consultation.

* Residente de primer año. Especialidad Obstetricia y Ginecología.
Facultad de Medicina Universidad Nacional de Colombia. Bogotá, Colombia.

** Profesores Asociados, Departamento de Patología. Facultad de Medicina Universidad Nacional de Colombia. Bogotá, Colombia.
Correo electrónico: oricaurteg@unal.edu.co

Discussion: AT is an infrequently occurring mesothelial benign tumour of the female genital tract; its treatment only requires conservative surgery. Its differential diagnosis includes malignant primary and metastatic tumours of both the uterine body and the ovaries, requiring oncologic resection and complementary chemo- and/or radiotherapy, according to their clinical state.

Key words: adenomatoid tumour, female genital neoplasm, differential diagnosis, pathology, immunohistochemistry.

INTRODUCCIÓN

El tumor adenomatoide (TA) es una neoplasia benigna infrecuente en el tracto genital femenino, inicialmente descrita en el tracto genital masculino, comprometiendo más frecuentemente el epidídimo, aunque también se ha informado en cordón espermático, túnica albugínea, *túnica vaginalis*, conducto eyaculatorio y en el parénquima testicular. Corresponde a 32% de los tumores testiculares y a 60% de las neoplasias benignas de esta localización.¹ La proporción de TA informada por género es de 5:3,5 con predominio en hombres. Los primeros informes de TA del cuerpo uterino datan de 1942 por Masson y col² y 1945 por Golden y Ash.³ Su importancia para el ginecólogo radica en su diagnóstico diferencial con neoplasias malignas del útero o del ovario. El objetivo de la presentación de casos es hacer una revisión de la literatura sobre la epidemiología y diagnóstico diferencial, con énfasis en sus características patológicas.

INFORME DE CASOS

Caso N° 1

Mujer de 39 años, quien consultó por hemorragia uterina anormal con antecedente de 3 gestaciones, 2 partos, 1 aborto y hallazgo ultrasonográfico de miomatosis uterina, manejada mediante histerectomía abdominal total. El estudio macroscópico de la pieza quirúrgica mostró útero de 90 g, con 8 cm de longitud, 4 cm de diámetro anteroposterior y 5 cm de diámetro transverso entre los cuernos. Al corte, se identificó un área

redondeada, blanquecina, trabeculada de 3 por 2,5 cm, violácea en su porción central, localizada en la pared anterior y lateral derecha (**figura 1**). El estudio histológico mostró un tumor benigno, constituido por pequeñas estructuras tubulares localizadas entre las células musculares lisas, revestidas por células aplanadas de núcleos ovoides que protruían en la luz. Algunas células presentaban prolongaciones citoplasmáticas discretas en la superficie luminal (**figuras 2A y B**).

Figura 1. Cortes de pared anterior de útero, lesión probablemente circunscrita de 3 por 2,5 cm trabeculada, con área violacea central.

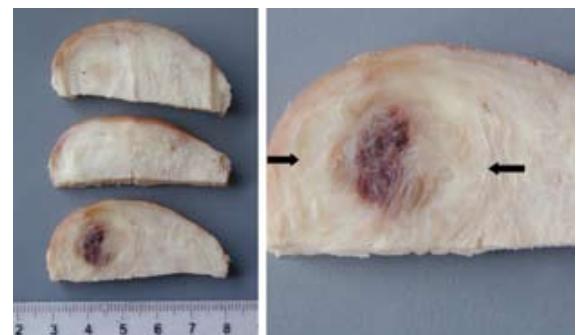
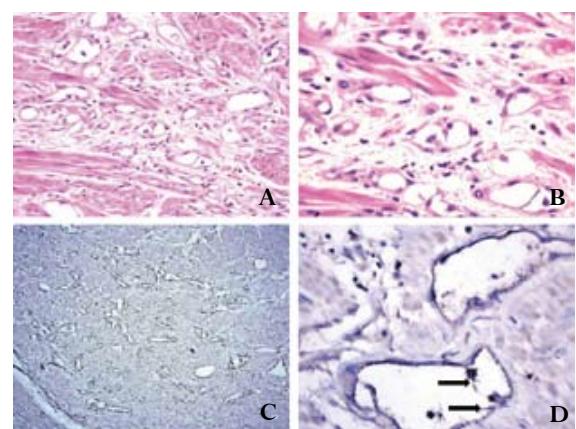


Figura 2. Tumor adenomatoide del cuerpo uterino, de patrón adenoide (clásico): miometrio con pequeñas estructuras tubulares interpuestas, revestidas por células aplanadas con núcleos ovoides que protruían en la luz, algunas células presentaban prolongaciones citoplasmáticas discretas en la superficie luminal. H&E, **A** (40x) y **B** (100x). Preparación de inmunohistoquímica para calretinina que muestra reactividad citoplasmática café en estructuras tubulares, **C** (25x) y **D** (400x) detalle de las prolongaciones citoplasmáticas (flechas).

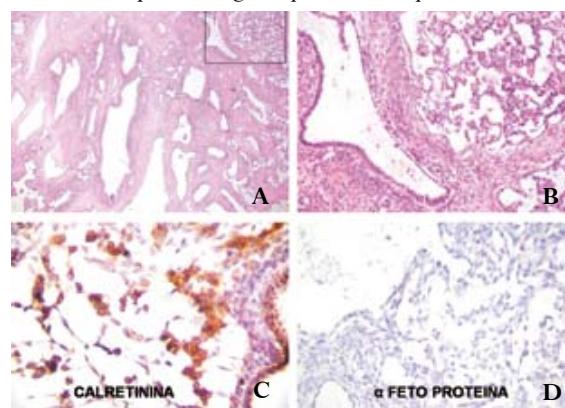


Se realizó un estudio de inmunohistoquímica con la técnica de avidina biotina peroxidasa, que mostró reactividad para calretinina (marcador mesotelial) en las células tumorales, documentándose el diagnóstico de tumor adenomatoide de patrón adenoide (clásico) (**figuras 2C y D**).

Caso Nº 2

Mujer de 26 años con masa ovárica pardo grisácea de 11,5 por 11 por 6 cm, al corte con componentes sólido y quístico multiloculado, con pequeñas cavidades de menos de 1 cm de diámetro, ocupadas por líquido translúcido amarillento. Los bloques de parafina fueron referidos para consulta con diagnóstico de tumor germinal de tipo tumor de seno endodérmico. El estudio histológico mostró un tumor benigno, constituido por estructuras tubulares pequeñas coalescentes, revestidas por células cúbicas o aplanasadas de núcleos redondeados y citoplasma eosinófilo, con proyecciones luminales y cambio quístico focal (**figuras 3A y B**). El estudio de inmunohistoquímica mostró reactividad intensa para calretinina y antígeno epitelial de membrana y débil para citoqueratina 5 y fue negativo para alfa fetoproteína (**figuras 3C y D**),

Figura 3. **A:** tumor adenomatoide del ovario, de patrones adenoide y angiomatoide con cambio microquístico focal, constituido por estructuras tubulares coalescentes y espacios pseudovasculares revestidos por células cúbicas o aplanasadas de núcleos redondeados, H&E A (40x). **B:** detalle del recuadro de la figura A (100x). **C:** preparación de inmunohistoquímica para calretinina que muestra reactividad citoplasmática café intensa en estructuras tubulares (100x). **D:** preparación de inmunohistoquímica negativa para alfa fetoproteína (100x).



hallazgos que confirman el diagnóstico de tumor adenomatoide de patrones adenoide y angiomatoide con cambio microquístico focal.

REVISIÓN DE LA LITERATURA

Metodología

Para la revisión bibliográfica se realizó una búsqueda en la base de datos *PubMed*, utilizando como palabras clave los términos “MeSH” *adenomatoid tumor AND female genital tract*. Además se revisaron libros clásicos de patología.

Epidemiología

La incidencia del TA es desconocida, pues generalmente se encuentra como un hallazgo incidental en piezas quirúrgicas de histerectomía. En el tracto genital femenino, el TA se presenta en orden de frecuencia en útero, trompas e hilio ovárico.^{4,5} El 20% de los TA uterinos se caracterizan por ser multifocales;⁶ en 16,6% de los casos hay coexistencia con adenomiosis,⁴ mientras que 60% se asocian a leiomiomas.⁵ Se ha informado una frecuencia entre 0,12 y 3,1% en piezas de histerectomía.⁴ En una serie de 6154 piezas de histerectomía, Huang encontró 23 tumores (0,37%)⁴ y en otra de cerca de 1000 especímenes se encontró en el 1,2% de las piezas.⁷ El rango de edad de las pacientes al momento del diagnóstico osciló entre los 26 y 55 años, con una media de 41 años.^{4,8} El TA del ovario es aún menos frecuente, suele diagnosticarse incidentalmente, comprometiendo el hilio ovárico.⁵

En pacientes con insuficiencia renal crónica y receptoras de trasplante renal se han informado casos de TA difusos y se ha planteado que la inmunosupresión favorecería este patrón de crecimiento.^{9,10} Gabor informó la coexistencia de un TA y un adenocarcinoma endometrial como el primer caso en la literatura.¹¹

Histopatología

El TA se caracteriza macroscópicamente por la presencia de nódulos pardo grisáceos, sólidos o con componente quístico de márgenes pobemente definidos, que comprometen el miometrio, la trompa

uterina o el ovario, e histológicamente por la presencia de formaciones ductales de tamaño variable, constituidas por células de núcleos ovoides pequeños y escaso citoplasma, que simulan estructuras vasculares, disponiéndose entre las fibras musculares miometriales o el estroma ovárico;^{4,5,8,12} la luz de algunas de estas estructuras se encuentra dividida por bandas filamentosas dispuestas en puente, que ultraestructuralmente corresponden a la aposición del citoplasma atenuado de dos células mesoteliales adyacentes¹³ que simulan un “aspecto adiposo”. El TA presenta patrones arquitectónicos variables, de acuerdo con el aspecto de las formaciones ductales y su disposición, para los cuales se han propuesto diferentes clasificaciones: Tiltman⁷ describió 4 tipos histológicos: tubular, canalicular, plexiforme y tipos mixtos, que corresponden a los tipos adenoide, angiомatoide, sólido y quístico, propuestos por Quigley y Hart.¹⁴ Aunque estos patrones pueden coexistir, suele prevalecer uno de ellos, siendo más frecuentes los tipos adenoide y angiомatoide. Además se ha descrito una variante oxifílica, caracterizada por intensa eosinofilia citoplasmática de las células tumorales.¹⁵

Aunque en su histogénesis se han sugerido orígenes mesonéfrico, mülleriano, endotelial y mesotelial, hoy se acepta este último. Varios estudios histológicos y ultraestructurales muestran rasgos mesoteliales y los estudios inmunohistoquímicos han demostrado reactividad para citoqueratina, calretinina, vimentina, HBME-1, trombomodulina y mesotelina.^{5,8,12,16-19} Además, en casos originados en peritoneo se han observado hallazgos similares que también soportan este origen.⁵ Otros autores han sugerido su origen en células madre mesenquimales, que se diferenciarían de células submesoteliales o mesoteliales.²⁰

Sus características ultraestructurales, que incluyen presencia de tonofilamentos, desmosomas y microvellosidades apicales son similares a las encontradas en las células mesoteliales.^{4,5}

De la misma manera que el mesotelioma, el TA se origina de la superficie mesotelial de las

cavidades serosas de tórax y abdomen y por ello ha sido denominado también mesotelioma benigno. Además de comprometer el tracto genital, se ha descrito en glándulas suprarrenales, mesenterio y epiplón mayor.

Diagnóstico

En la mayoría de casos, el TA no tiene un cuadro clínico característico y su diagnóstico se efectúa por el estudio histológico de las piezas quirúrgicas resecadas por otra indicación en útero, generalmente por condiciones benignas del miometrio, como adenomiosis y leiomiomas. En algunos informes de casos estudiados con ecografía, tomografía y/o resonancia magnética nuclear, el TA ha sido confundido con leiomiomas, incluyendo variedades de TA difuso y macroquístico,²¹⁻²⁴ posiblemente debido al componente de músculo liso miometrial interpuesto en el TA y a la degeneración quística que sufren algunos leiomiomas. Sin embargo, conviene resaltar que en uno de los casos pudo precisarse el diagnóstico gracias el estudio de biopsias transvaginales guiadas por ecografía.²³ Uno de los rasgos macroscópicos de la lesión, que podría orientar su diagnóstico imagenológico, es la pobre definición de sus márgenes, que difieren del carácter circunscrito bien delimitado de los leiomiomas. También se han informado características ultrasonográficas de TA de ovario.²⁵

El aspecto más relevante del TA es su diagnóstico diferencial, que en útero incluye adenocarcinoma endometrial o metastático y linfangioma, mientras en ovario debe hacerse con tumores epiteliales serosos, endosalpingiosis, tumor de seno endodérmico, metástasis y tumores del estroma gonadal para la variante oxifílica. Los rasgos histológicos que favorecen el diagnóstico de TA son: ausencia de atipia nuclear, actividad mitótica ausente o baja y la presencia de discretas proyecciones citoplasmáticas; su confirmación puede efectuarse mediante estudio de microscopía electrónica o inmunohistoquímica, con esta última se demuestra la expresión de antígeno epitelial de membrana, citoqueratina

5, calretinina, mesotelina y HBME-1, y ausencia de reactividad para marcadores vasculares y alfa fetoproteína, cuando el diagnóstico diferencial lo requiera.^{5,15,16-19}

El TA es benigno, aunque en 2005 se publicó un caso de un TA gigante recurrente en una paciente joven nulípara, quien después de 3 resecciones transcervicales requirió resección con biopsia intraoperatoria por congelación, para garantizar la negatividad de los márgenes para el tratamiento definitivo de la lesión,²⁶ no se han informado metástasis, por ello, aunque discutir detalles de manejo del TA escapa del objetivo de este informe, conviene resaltar que su tratamiento se limita a efectuar su escisión simple mediante histerectomía u ooforectomía, de acuerdo con sus características, localización y deseo de paridad (4) considerando su comportamiento biológico benigno.

CONCLUSIÓN

Los dos casos informados corresponden a TA de cuerpo uterino y ovario. Ésta es una neoplasia benigna de origen mesotelial, infrecuente en el tracto genital femenino, cuyo diagnóstico se efectúa mediante el estudio histopatológico e inmunohistoquímico; el aspecto más relevante de este tumor es su diagnóstico diferencial, que varía de acuerdo con su localización y patrón histológico e incluye tumores malignos de histogénesis diversa (epitelial, mesenquimal, germinal, del estroma gonadal y los cordones sexuales), que suelen requerir de manejo agresivo con resecciones amplias y quimio y/o radioterapia, de acuerdo con su estado clínico. Para el TA está indicado un manejo conservador con escisión simple.

REFERENCIAS

- Ullbright TM, Amin MB, Young RH. Tumors of the testis, adnexa, spermatic cord and scrotum. Armed Forces Institute of Pathology; Atlas of Tumor Pathology, Fascicle 25. Washington D.C.: AFIP; 1999. p. 243-7.
- Masson P, Riopelle JL, Simard LC. Le mesotheliome benin de la sphère génitale. Rev Canad Biol 1942;1:720-5.
- Golden A, Ash JE. Adenomatoid tumors of the genital tract. Am J Pathol 1945;21:63-79.
- Huang C, Chang D, Chen CK, Chou YY, Huang SC. Adenomatoid tumor of the female genital tract. Int J Gynecol Obstet 1995;50:275-80.
- Nogales FF, Isaac MA, Hardisson D, Bosincu L, Palacios J, Ordi J, et al. Adenomatoid tumors of the uterus: an analysis of 60 cases. Int J Gynecol Pathol 2002;1:34-40.
- Hanada S, Okumura Y, Kaida K. Multicentric adenomatoid tumors involving uterus, ovary, and appendix. J Obstet Gynaecol Res 2003;29:234-8.
- Tiltman AJ. Adenomatoid tumours of the uterus. Histopathology 1980;4:437-43.
- Canedo-Patzi AM, De León-Bojorge B, Ortíz-Hidalgo C. Tumor adenomatoidoide del tracto genital. Estudio clínico patológico e inmunohistoquímico de 9 casos. Gaceta Médica Mexicana 2006;142:59-66.
- Bülent Tiras M, Noyan V, Süer Ö, Bali M, Edali N, Yıldırım M. Adenomatoid tumor of the uterus in a patient with chronic renal failure. European Journal of Obstetrics & Gynecology and Reproductive Biology 2000;92:205-7.
- Cheng CL, Wee A. Diffuse uterine adenomatoid tumor in an immunosuppressed renal transplant recipient. Int J Gynecol Pathol 2003;22:198-201.
- Cserni G, Kocsis L, Pusztai Z, Godó G. Endometrial adenocarcinoma with coexisting adenomatoid tumor of the uterus. Gynecol Oncol 2003;90:207-10.
- Amre R, Constantino J, Lu S, Charney D. Pathologic quiz case a 52-year-old woman with a uterine mass. Arch Pathol Lab Med 2005;129:e77-78.
- Hes O, Pérez-Montiel DM, Alvarado Cabrero I, Zamenick M, Podhola M, Sulc M, et al. Thread-like bridging strands: a morphologic feature present in all adenomatoid tumors. Ann Diagn Pathol 2003;7:273-7.
- Quigley JC, Hart WR. Adenomatoid tumors of the uterus. Am J Clin Pathol 1981;76:627-35.
- Phillips V, McCluggage G, Young RH. Oxyphilic adenomatoid tumor of the ovary: a case report with discussion of the differential diagnosis of ovarian tumors with vacuoles and related spaces. Int J Gynecol Pathol 2006;26:16-20.
- Satoh Y, Hiraguchi M, Matuura T, Takasu K. Immunohistochemical evidence of the mesothelial histogenesis of a uterine adenomatoid tumor. J Obstet Gynaecol Res 1998;24:91-101.
- Kawamura K, Sekiguchi K, Shibata S. Immunohistochemical analysis of adenomatoid tumor of the uterus utilizing of monoclonal antibody HBME-1. Acta Obstet Gynecol Scand 2000;79:798-9.

18. Ordóñez NG. Application of mesothelin immunostaining in tumor diagnosis. *Am J Surg Pathol* 2003;27:1418-28.
19. Bostwick DG, Ma J, Qiang J, Josefson D, Liu L. Immunohistology of the prostate, bladder, teste and kidney. En: Dabbs D. *Diagnostic Immunohistochemistry*. 2nd Ed. Philadelphia: Churchill Livingston Elsevier; 2006. p. 509-611.
20. Mai KT, Yazdi HM, Perkins DG, Isotalo PA. Adenomatoid tumor of the genital tract: evidence of mesenchymal cell origin. *Pathol Res Pract* 1999;195:605-10.
21. Mitsumori A, Morimoto M, Matsubara S, Yomamoto M, Akamatsu N, Hiraki Y. MR appearance of adenomatoid tumor of the uterus. *J Comput Assist Tomogr* 2000;24:610-3.
22. Kim JY, Jung KJ, Sung NK, Chung DS, Kim OD, Park S. Cystic adenomatoid tumor of the uterus. *AJR Am J Roentgenol* 2002;179:1068-70.
23. Walker WJ, Jones K. Transvaginal ultrasound guided biopsies in the diagnosis of pelvic lesions. *Minim Invasive Ther Allied Technol* 2003;12:241-4.
24. Luchs J, Diel J, Katz DS. Diffuse adenomatoid tumor of the uterus. *AJR Am J Roentgenol* 2000;175:554-5.
25. Ghossain MA, Chucrallah A, Kanso H, Aoun NJ, Abboud J. Multilocular adenomatoid tumor of the ovary: ultrasonographic findings. *J Clin Ultrasound* 2005;33:233-6.
26. Sieunarine K, Cowie AS, Bartlett JD, Lindsay I, Smith JR. A novel approach in the management of a recurrent adenomatoid tumor of the uterus utilizing a Strassman technique. *Int J Gynecol Cancer* 2005;15:671-5.

Conflictos de intereses: ninguno declarado.