

Angioleiomioma de nervio periférico

S. AMILLO GARAYOA, M. LEYES VENCE, R. MARTINEZ PERIC, M. SAN JULIAN ARANGUREN

Departamento de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Clínica Universitaria de Navarra.

Resumen.—Se realiza una revisión bibliográfica y se presenta un caso de angioleiomioma localizado en borde cubital de muñeca izquierda, en el ramo dorsal sensitivo del nervio cubital. Este tumor debe ser considerado en el diagnóstico diferencial de los nódulos subcutáneos dolorosos localizados en extremidades. No hemos encontrado descrito este tipo de tumor en un nervio periférico.

Palabras clave: Tumores de tejidos blandos. Angioleiomioma.

ANGIOLEIOMYOMA OF PERIPHEAL NERVE

Summary.—A case of angioleiomyoma on the medial aspect of the left wrist in the dorsal sensitive branch of the ulnar nerve, and a review of the literature are presented. This tumor should be considered in the differential diagnosis of patients who have a painful subcutaneous nodule at the extremities. There is no report in the literature on this type of tumor affecting a peripheral nerve.

Key Words: Soft tissue neoplasms. Angioleiomyoma.

INTRODUCCIÓN

El angioleiomioma es un tumor benigno que surge del músculo liso de los vasos. Stout en 1937 fue el primer autor en utilizar el término de angioleiomioma (1), pero la misma lesión ya había sido descrita un siglo antes por Axel Key con el nombre de "tubérculo doloroso leiomiomatoso" (2).

Su incidencia es baja representa el 5% de los tumores benignos de partes blandas (3) y el 25% del conjunto de los leiomiomas superficiales (4).

Habitualmente se presenta en mujeres de edad media como un nódulo solitario doloroso localizado en extremidades (5).

Correspondencia:

Dr.D. SANTIAGO AMILLO GARAYOA
Dpto. de C. Ortopédica y Traumatología.
Clínica Universitaria de Navarra
31080 Pamplona. Apartado 192.

Se presenta un caso insólito de angioleiomioma localizado en el borde cubital de la muñeca, afectando el ramo dorsal sensitiva del nervio cubital.

CASO CLÍNICO

Paciente varón de 55 años que consultó por presentar tumoración localizada en el borde cubital de la muñeca izquierda, de crecimiento progresivo, de dos años de evolución, que en los últimos seis meses le provocaba dolor espontáneo.

En la exploración física se apreciaba un nódulo subcutáneo de 2x1.5x1 cm, adherido a planos profundos, de consistencia dura y sensible a la palpación. No se encontraron alteraciones neurovasculares en la mano y la movilidad de la muñeca era normal.

La resección del nódulo se realizó mediante un abordaje longitudinal de 3 cm en el borde cubital de la muñeca. La tumoración englobaba el ramo dorsal sensitivo del nervio cubital. Se procedió a la extirpación de la masa tumoral junto con el pedículo nervioso.

El nódulo reseado (Fig. 1) era de coloración par-

do-grisácea, consistencia firme y bien encapsulado, con un diámetro máximo de 15 mm. Lateralmente emergía un pedículo de consistencia blanda que macroscópicamente correspondía a un nervio. La pieza al corte presentaba una coloración blanquecina y una superficie ligeramente fasciculada.

El examen microscópico mostró haces de fibras musculares lisas hipertróficas dispuestas alrededor de vasos de pared gruesa (Fig. 2). La tumoración estaba bien delimitada por una pseudocápsula y en la zona de unión con el pedículo se apreciaban abundantes vasos de tipo capilar y cavernoso (Fig. 3). El diagnóstico anatomopatológico fue de angioleiomioma capilar.

La resección del tumor fue curativa. Las molestias han desaparecido y el paciente presenta un área de hipoestesia en borde cubital de la muñeca.

DISCUSIÓN

Los angioleiomiomas son tumores benignos que se forman a partir de las fibras musculares lisas de los vasos. La mayoría de los autores coinciden en que surgen de las venas (1,6,7,8,9), aunque en ocasiones se pueden aislar pequeñas arterias en el seno del tumor. En el caso que presentamos es probable que el tumor surja de los propios vasos del nervio en el tejido conectivo epineural.

Macroscópicamente son nodulos únicos, redondeados y bien delimitados que se localizan en dermis profunda e hipodermis, generalmente de pequeño tamaño, el 78% son menores de 2 cm de diámetro (3).

Existen tres tipos histológicos: capilar o sólidos, cavernoso y venoso. En la revisión de 562 casos realizada por Hachisuga en 1984 el 66% de los tumores eran sólidos, el 11% cavernosos, y los de tipo venoso representaban el 23% (3).

Los hallazgos histológicos típicos son los canales vasculares tortuosos y las gruesas paredes musculares que envuelven a los vasos sanguíneos. Esta cubierta muscular está constituida por fibras musculares lisas de espesor variable que adoptan una disposición espiroidal o tangencial. Los vasos centrales exhiben los hallazgos ultraestructurales típicos de las pequeñas vénulas con un endotelio prominente y un gran número de cuerpos de Weiber Palade (10). Exceptuando unas pocas fibras nerviosas amielínicas que acompañan a las pequeñas arteriolas, no se encuentran estructuras nerviosas significativas (2,9,11).



Figura 1. Aspecto macroscópico de la tumoración con su pedículo nervioso.

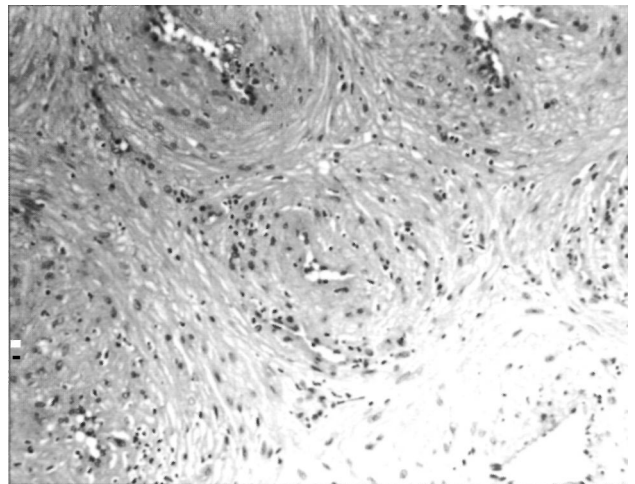


Figura 2. La tumoración aparece constituida por haces de fibras musculares lisas hipertróficas, dispuestas alrededor de vasos de pared gruesa, constituida únicamente por músculo liso (175x).



Figura 3. En la zona de unión con el pedículo nervioso se observan abundantes vasos de aspecto capilar y cavernoso.

Heim ha encontrado anomalías cromosómicas, en angioleiomiomas que presentan hallazgos histológicos atípicos (12), similares a las halladas en algunos leiomiomas uterinos (13).

Los angioleiomiomas son más frecuentes en mujeres, relación 1'7:1 (3), excepto los que se localizan en la cavidad oral (14). Aparecen casi exclusivamente en adultos, en una revisión de 39 casos realizada en la Clínica Mayo la edad media era de 52 años (15).

La localización más frecuente es con diferencia la extremidad inferior, le siguen en frecuencia la cabeza y el tronco. En la cabeza se localizan habitualmente en oído externo, labios y cavidad nasal (16). Duhig y Ayer (10) tenían la hipótesis de que la distribución de estos tumores estaba en relación con factores mecánicos y con los niveles tisulares de estrógenos.

El dolor es el hallazgo clínico más frecuente,

siendo el síntoma de comienzo en el 67% de los pacientes (15). Los angioleiomas dolorosos son frecuentemente de tipo sólido y se localizan en las extremidades. La etiología del dolor no es clara. Morimoto (6) sugiere que se debe a la contracción de los vasos que provoca isquemia local, Magner y Hill (9) han demostrado en algunos casos la presencia de nervios en la cápsula del tumor. En nuestro caso el dolor puede ser secundario a la compresión extrínseca de la rama sensitiva del nervio cubital.

El intervalo medio entre la aparición del tumor y el diagnóstico es de 4 años para el tipo sólido, 5 años para el cavernoso y 7 años para el venoso (3).

Todos los autores coinciden al señalar que el tratamiento de elección es la resección de la tumoración. De los 45 pacientes presentados por Duhig y Ayer ninguno presentó recurrencia de la tumoración después de la resección (11).

Bibliografía

1. Stout AP. Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. *Am J Cancer* 1937; 29: 435-69.
2. Delgado V, Camacho F, Naranjo R, Dulanto F. Angioleiomiomas: Estudio clínico, histológico y ultraestructural. *Actas Dermo-Sifilográficas* 1980; Julio-Agosto: 277-82.
3. Hachisuga T, Hashimoto H, Munetomo E. Angioleiomyoma: a clinicopathologic reappraisal of 562 cases. *Cancer* 1984; 54: 126-30.
4. Montgomery H, Winkelmann RK. Smooth muscle tumors of the skin. *Arch Dermatol* 1979; 79: 32.
5. Sweeney J, Keating SE. Angioleiomyoma. *J Foot-Surg* 1983; 22(1): 21-2.
6. Morimoto N. Angiomtoma (vascular leiomyoma): A clinicopathologic study. *Med J Kagoshima Univ* 1973; 24: 663-83.
7. Auger C. Les leiomyomes d'origine vasculaire de la peau et des mequeuses. *Laval Med* 1951; 16: 905-15.
8. Mac Donald DM, Sanderson KV. Angioleiomyoma of the skin. *Br J Dermatol* 1974; 91: 161-8.
9. Magner D, Hill DP. Encapsulated angioiomyoma of the skin and subcutaneous tissue. *Am J Clin Pathol* 1961; 35: 137-41.
10. Seifert HW. Ultrastructural investigation on cutaneous angioleiomyoma. *Arch Dermatol Res* 1981; 271(1): 91-9.
11. Duhig JT, Ayer JP. Vascular leiomyoma: A study of sixty one cases. *Arch Pathol Lab Med* 1959; 68: 424-30.
12. Heim S, Mandahl N, Kristofferson U et al. Structural chromosome aberrations in a case of angioleiomyoma. *Cancer Genet Cytogenet* 1986; 15: 20(3-4): 325-30.
13. Nibet M, Heim, S. Uterine leiomyoma cytogenetics. *Genes. Chromosom Cancer* 1990; 2(1): 3-13.
14. Gutmann J, Cifuentes C. Angiomyoma of the oral cavity. *Oral Surgery* 1974; 38: 269.
15. Freedman AM, Meland NB. Angioleiomyomas of the extremities: report of a case and review of the Mayo Clinic experience. *Plast Reconstr Surg* 1989; 83(2): 328-31.
16. Sawada Y. Angioleiomyoma of the nasal cavity. *J Oral Macillofac Surg* 1990; 10: 1100-1.