

Leiomioma esofágico. Experiencia con diez casos operados en el "Hospital Dr. Rafael Ángel Calderón Guardia"

Esophageal leiomyoma. Experience with nine surgical patients

Giovanna Mainieri-Breedy¹, José-Alberto Mainieri-Hidalgo²

Resumen

Objetivo: informar la experiencia adquirida con la cirugía para leiomiomas esofágicos en el Servicio de Cirugía de Tórax del Hospital Dr. R. A. Calderón Guardia.

Métodos: durante el período de 12 años comprendido entre 1999 y 2011, fueron referidos 14 pacientes con tumores submucosos del esófago al Servicio de Cirugía de Tórax del Hospital Calderón Guardia. En cuatro pacientes asintomáticos con tumores pequeños se decidió observar, y diez fueron operados, confirmándose el diagnóstico histológico de leiomioma. Previa autorización del Comité de Ética del Hospital, se revisaron los expedientes clínicos, analizando las características personales, los síntomas, los métodos de diagnóstico, el tratamiento quirúrgico y la evolución de los pacientes operados.

Resultados: se encontró que de los diez pacientes operados, ocho fueron varones, en edades entre los 38 y 71 años, con un promedio de 56 años. El síntoma principal fue disfagia, pero en 3 casos el tumor fue un hallazgo incidental de una endoscopia de rutina. El método de detección en todos los casos fue la endoscopia en la que se describió un tumor submucoso o una compresión extrínseca de la pared esofágica. El ultrasonido endoscópico se correlacionó con un tumor originado en la cuarta capa, posible leiomioma. En dos casos, debido a las dimensiones de la lesión, se planteó la posibilidad de malignidad. La tumoración se intervino en nueve casos por toracotomía y en uno, por laparotomía. En 7 casos se enucleó sin que se abriera la mucosa, en dos se realizó esofagectomía parcial con anastomosis y parche de diafragma, y en un caso, excepcional, la tumoración se extendía desde el esófago cervical hasta la unión esófago-gástrica, de manera que se realizó una esofagectomía total, con ascenso gástrico y anastomosis cervical. No hubo ningún caso de mortalidad. Un paciente presentó una pequeña fuga de la anastomosis, la cual resolvió espontáneamente. Dos pacientes manifestaron complicaciones respiratorias que prolongaron su estancia. No se han evidenciado recidivas ni otras complicaciones, y el seguimiento de los pacientes oscila entre 8 meses y 12 años.

Conclusión: el leiomioma esofágico es una patología poco frecuente. La cirugía de los tumores submucosos del esófago, cuando se estudian y manejan adecuadamente en el preoperatorio, se puede realizar sin mayor morbilidad; ninguno de los casos de esta serie presentó complicaciones ni recidivas hasta la fecha de la revisión.

Descriptor: leiomioma esofágico, esófago, tumores, tumores benignos del esófago, ultrasonido endoscópico

Abstract

Objective: To inform about the experience acquired operating esophageal leiomyoma in the Thoracic Surgery Department of the Calderón Guardia Hospital.

Servicio Cirugía de Tórax, Hospital Dr. Rafael Ángel Calderón Guardia, Caja Costarricense de Seguro Social.

Afiliación de los autores:

¹Centro de Detección Temprana de Cáncer Gástrico. Hospital Max Peralta. Caja Costarricense de Seguro Social. ²Servicio de Cirugía de Tórax, Hospital Dr. Rafael Ángel Calderón Guardia, Caja Costarricense de Seguro Social.

Abreviaturas: BAAF, biopsia por aspiración con aguja fina; GIST, tumor de estroma gastrointestinal; TAC, tomografía axial computarizada; T2, medida en la resonancia magnética que indica mayor tiempo de eco y mayor tiempo de repetición; USE, ultrasonido endoscópico

Correspondencia:

mainierijose@hotmail.com

Methods: Fourteen patients with submucosal esophageal tumors were referred to the Thoracic Surgery Department at Hospital Calderón Guardia during the twelve-year period comprised between 1999 and 2011. The approach for four asymptomatic patients with a small mass was observation, and the remaining ten underwent surgical procedures, which confirmed the histologic diagnosis of leiomyoma. Once authorization was granted by the hospital's Ethics Committee, clinical records were reviewed, considering personal characteristics, symptoms, methods for diagnosis, surgical treatment and follow-up for the patients involved.

Results: Ten surgical patients were analyzed, eight were male and two female. Their age ranged from 38 to 71 years, with a mean of 56 years. Their primary complaint was dysphagia, but in three cases the tumor findings were incidental, while performing a routine upper endoscopy. In all cases the method used for detection was an upper endoscopy describing either a submucosal tumor or an extrinsic compression of the esophageal wall. The endoscopic ultrasound correlated in all cases that the tumor originated from the fourth layer of the esophagus, compatible with leiomyoma. In two cases the possibility of malignancy was questioned due to the dimensions of the lesion. Nine patients were operated through a thoracotomy and one through a laparotomy. In 7 cases enucleating was successful without perforation of the mucosa. In two patients partial esophagectomy with anastomosis and diaphragmatic patch was performed. In an exceptional case, the tumor extended from the cervical esophagus to the esophagogastric union, so a total esophagectomy was done with a gastric interposition. There was no mortality reported. One patient had complications with an anastomotic leak that was resolved without intervention. Two patients had respiratory complications that prolonged their hospital stay. There has not been any relapse or other complication; the follow up ranges between 8 months and 12 years.

Conclusion: The esophageal leiomyoma is an un common pathology. The surgery of submucosal esophageal tumors can be performed without mayor morbidity if there is an adequate preoperative evaluation and management. None of the cases of this series had complications or recurrence to the date the study was made.

Key words: esophageal leiomyoma, esophagus, tumors, endoscopic ultrasound.

Fecha recibido: 20 de junio de 2011

Fecha aceptado: 28 de mayo 2012

Los tumores benignos del esófago son poco frecuentes; constituyen menos del 1% de las neoplasias de este órgano. El leiomioma es el más común, ocurre aproximadamente en dos tercios de los casos y representa el 10% de los leiomiomas gastrointestinales. El resto son quistes y pólipos. La incidencia general de los leiomiomas esofágicos es de 8 a 43 por 10,000, en series de autopsia. El 90% se diagnostica entre los 20 y 70 años, y son dos veces más frecuentes en hombres que en mujeres (2:1).¹

Los leiomiomas son tumores mesenquimatosos que crecen de forma intramural. La mayoría se localiza en el tercio distal del esófago (60%), seguido por el medio (33%) y el superior (7%).² Histológicamente, están formados por ovillos de músculo liso, bien demarcados por el tejido adyacente o por una capsula de tejido conectivo. Macroscópicamente, se visualizan como masas bien definidas en la pared esofágica, que al corte son sólidas y de color blanco grisáceo. La mayoría se presenta como lesiones únicas, menores de 5 cm de diámetro; sin embargo, en un 5% pueden ser múltiples, en especial en pacientes con síndrome de Alport. Las grandes se presentan como masas mediastinales posteriores que producen compresión de órganos adyacentes y pueden confundirse con neoplasias.³ El diagnóstico diferencial se hace con cáncer de esófago, tumores de estroma gastrointestinal (GIST) y otros tumores benignos del esófago.⁴ La leiomiomatosis se caracteriza por hipertrofia

difusa de todas las capas musculares del esófago y presencia de infiltración celular linfática y plasmática; suele acompañarse de leiomiomas en otros sitios, neuropatía, problemas auditivos, miopía o astigmatismo (síndrome de Alport). El manejo en estos casos consiste en la resección esofágica y su reemplazo con estómago o colon.⁵⁻⁷

Cuando son pequeños (menores de 5 cm), rara vez manifiestan síntomas. Su crecimiento es usualmente lento y, conforme crecen, presentan síntomas intermitentes y progresivos similares a los del cáncer de esófago, como disfagia, malestar retroesternal, dolor torácico, pérdida de peso, obstrucción esofágica y regurgitación. El tamaño para producir síntomas suele ser mayor de 6 u 8 cm.⁸

Los métodos diagnósticos más utilizados son: esofagograma, endoscopia, ultrasonido endoscópico (USE), y tomografía axial computarizada (TAC). En el esofagograma, la apariencia clásica es un defecto de llenado de borde liso y cóncavo con los pliegues normales de la mucosa.^{1, 3} En la endoscopia se observa una lesión submucosa móvil, con la mucosa intacta. Si se sospecha un leiomioma, se debe evitar tomar biopsia por cualquier método, porque el desgarro de la mucosa dificulta la resección extramucosa (enucleación). Si hay ulceración o sospecha de malignidad, se debe tomar biopsia y un método útil es por aguja fina (BAAF). Si se realiza biopsia, se recomienda posponer la

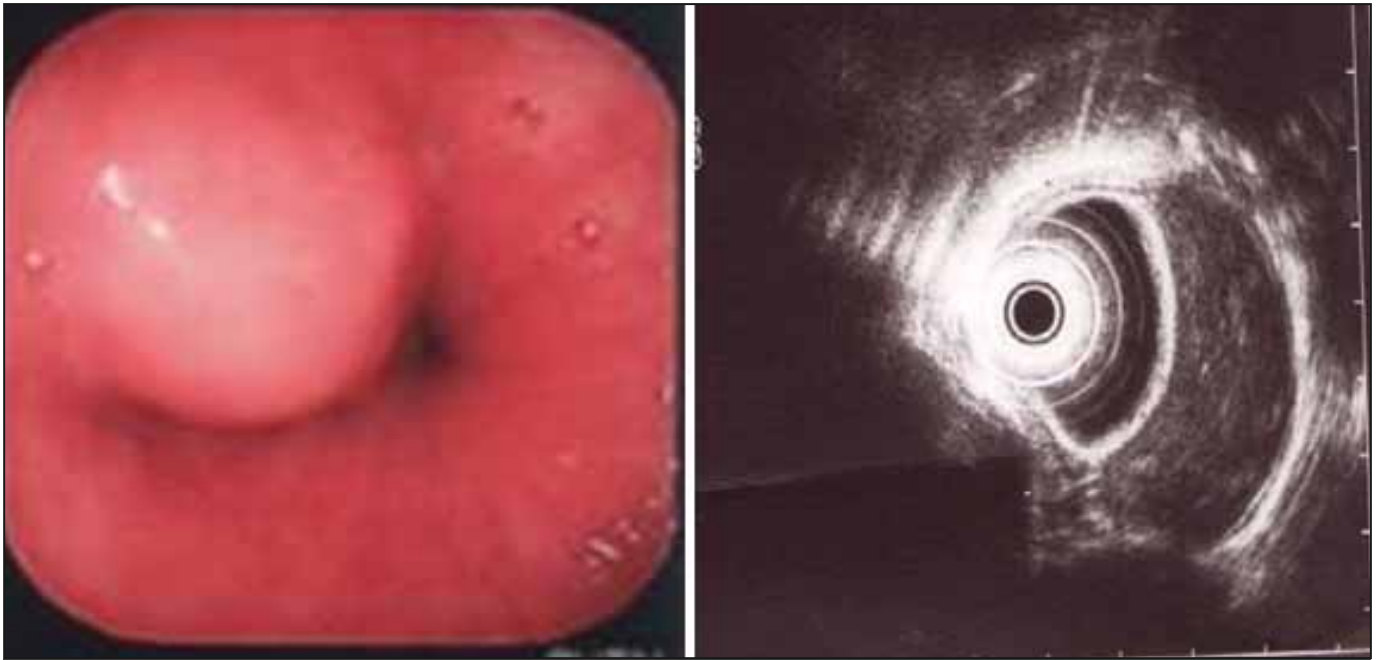


Figura 1. a. imagen endoscópica de un leiomioma sub- mucoso y b. ultrasonido endoscópico de un leiomioma del esófago.

cirugía por lo menos dos semanas, para permitir que la mucosa esofágica sane y disminuir el riesgo de perforación.⁹ En el ultrasonido endoscópico se visualiza una región homogénea de hipocogenicidad yuxtapuesta con la mucosa subyacente. Los hallazgos radiológicos de un leiomioma esofágico lo describen como una masa marginal, lisa, redonda o lobulada, que se proyecta a uno o ambos lados del mediastino, a lo largo del trayecto esofágico. En la TAC se describe una masa homogénea intramural redondeada u ovoide, o un engrosamiento de la pared esofágica, sin alteración de la grasa mediastínica. Las imágenes por resonancia magnética con T2 emiten una señal iso-intensa, mientras que en el cáncer esofágico son de alta intensidad.^{2,3}

Los tumores submucosos pequeños y asintomáticos pueden ser vigilados periódicamente. La indicación de researlos se basa en los síntomas, tamaño (mayor de 5 cm), existencia de crecimiento, ulceración o degeneración maligna, lo que es extraño.¹⁰ El método recomendado es la enucleación, preservando la integridad de la mucosa. Cuando el tumor es mayor de 8 cm, cuando está adherido a la mucosa, o cuando se ha producido desgarro extenso de esta durante la disección, puede ser necesario resecar parte del esófago. El uso de endoscopia concomitante ayuda a ubicar la lesión y detectar perforaciones de la pared esofágica.¹¹ En 1992, Everitt informó la primera enucleación esofágica toracoscópica exitosa, y en 2010, Wang y cols,¹²⁻¹⁴ la resección por toracoscopia de 42 leiomiomas esofágicos o GISTs, con diámetros de hasta 5 cm. Se concluye que la cirugía endoscópica se puede realizar con buenos resultados, aunque tiene mayor riesgo de perforación al compararla con la convencional.¹⁵

La mortalidad de la escisión por toracotomía es del 0 al 1,3%,² y la morbilidad descrita incluye dolor, atelectasia y neumonía. El seguimiento consiste en realizar esofagogramas y endoscopias periódicas para detectar recidivas.^{16,17}

El objetivo del presente trabajo es revisar los casos manejados quirúrgicamente en el Servicio de Cirugía de Tórax del Hospital Calderón Guardia, que es un centro de referencia de esta patología, con el fin de analizar e informar las características particulares de los pacientes con leiomiomas, los métodos de detección y estudio, así como los resultados de la remoción quirúrgica.

Materiales y método

Previa revisión y autorización del protocolo por el Comité de Ética e Investigación del Hospital, se revisaron los expedientes clínicos de catorce pacientes incluidos en la base de datos del Servicio de Cirugía de Tórax, los cuales fueron evaluados por leiomiomas esofágicos durante el período comprendido entre 1999 y 2011, analizando las características de los pacientes, los datos clínicos, los métodos de detección y estudio, la cirugía realizada y el control postoperatorio. Cuatro pacientes asintomáticos con sospecha de leiomiomas, que no fueron operados, no se incluyeron en el estudio y continuaron en control con Gastroenterología.

Resultados

Durante el período estudiado, se intervino a diez pacientes con leiomiomas esofágicos. Las edades oscilaron entre los 38 y los 71 años, con un promedio de 56. En relación con el género, ocho fueron varones y dos mujeres. Siete casos fueron detectados en el Centro para Detección Temprana de Cáncer del Hospital Max Peralta.

Cuadro 1. Distribución por años, de casos de leiomiomas esofágicos resecaados en el Hospital Calderón Guardia

Año	No. casos
1999	2
2004	1
2005	1
2007	3
2008	1
2010	1
2011	1
Total	10

La distribución por año de detección se muestra en el Cuadro 1, y corresponde a menos de un caso por año, para un centro de referencia nacional de tercer nivel, que recibe un poco más de un tercio de la población adulta.

De los diez pacientes, siete consultaron por disfagia, y en tres casos el hallazgo fue incidental, al realizar una endoscopia por síntomas digestivos altos. El método de detección en todos los casos fue con endoscopia, en la que se describió la presencia de una lesión submucosa bien delimitada, o compresión extrínseca de la pared esofágica con integridad de la mucosa (Fig. 1a). En una oportunidad se describió ulceración de la mucosa.

El esofagograma se realizó en cinco casos; en dos se describió compresión extrínseca de la pared esofágica; en dos, una lesión que disminuía el diámetro de la luz esofágica, de origen por determinar, y en uno, la tumoración submucosa (Fig. 2a).

El ultrasonido endoscópico en nueve de los diez casos describió una lesión que se originaba de la cuarta capa, con tamaño muy similar al descrito por el patólogo en la pieza quirúrgica. En un caso no se realizó tal estudio. El diagnóstico del ultrasonografista fue de leiomioma en siete casos, y de leiomioma o leiomiosarcoma en 2 casos (Fig. 1b).

En un caso el crecimiento se produjo hacia fuera de la luz, adquiriendo gran tamaño y manifestándose en la TAC como una tumoración del mediastino posterior (Fig. 2b).

El tratamiento quirúrgico en siete casos fue enucleación de la tumoración, respetando la integridad de la capa mucosa. En dos casos se realizó esofagectomía parcial con anastomosis término terminal y parche de diafragma, y en el caso de un leiomioma que se extendía desde el cuello hasta la unión cardiesofágica, esofagectomía total con ascenso gástrico y esófagostoma anastomosis cervical.

La localización fue de un caso en el tercio proximal, pero de ubicación intratorácica; ocho en el tercio medio, todos intervenidos por toracotomía derecha, y un caso en el tercio distal, que se accedió por laparotomía.

Ningún paciente falleció. Uno con esofagectomía presentó una pequeña fuga de la anastomosis, descrita en un esofagograma como un divertículo a nivel de la anastomosis, el cual no requirió reintervención. Dos pacientes manifestaron infecciones respiratorias que prolongaron la

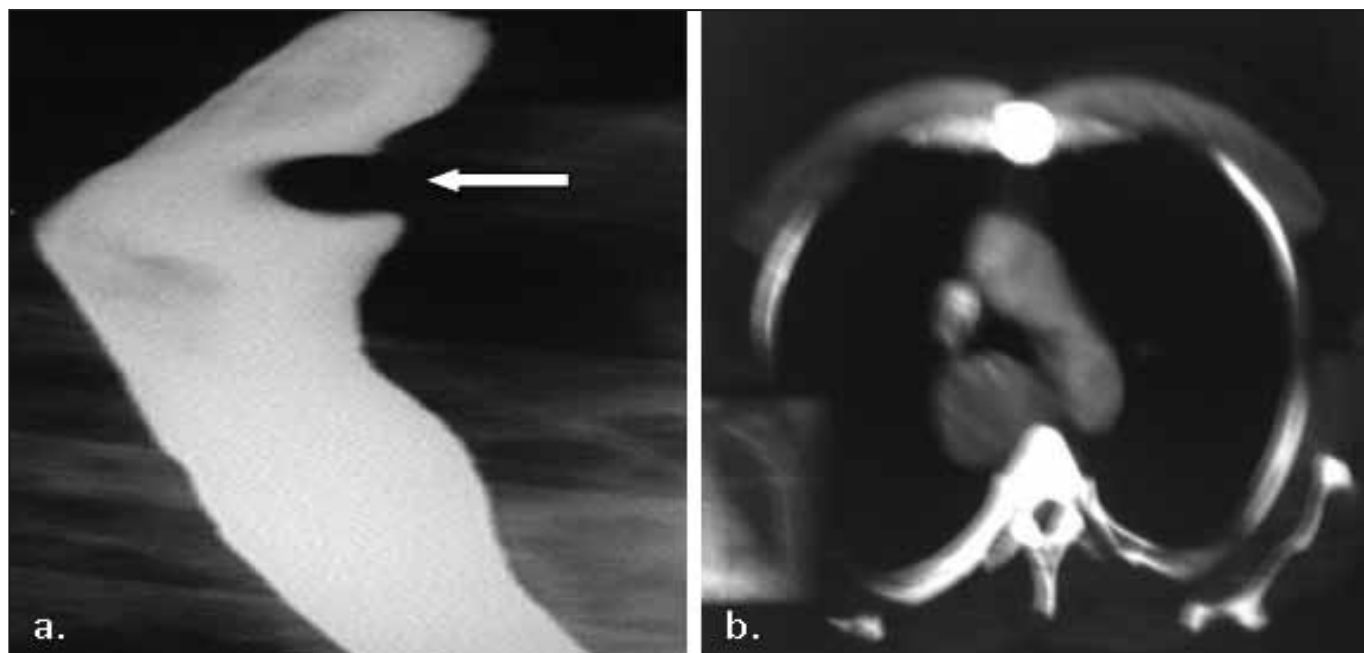


Figura 2 a. imagen de un leiomioma del esófago en un esofagograma **b.** tomografía axial computarizada mostrando un leiomioma esofágico de gran tamaño en el mediastino posterior

estancia postoperatoria. Uno se quejó de dolor prolongado en el dermatomo del abordaje quirúrgico, por lo que requirió infiltraciones y apoyo psicológico.

No se han presentado recidivas ni otras complicaciones y el seguimiento de los pacientes oscila entre 8 meses y 12 años.

Discusión

El leiomioma del esófago es un tumor poco frecuente, y durante los doce años del estudio se extirparon solo 10, en un centro de alta referencia nacional. El síntoma principal, al igual que la mayoría de los padecimientos del esófago, fue disfagia, por lo que este no orienta hacia el diagnóstico específico. Sin embargo, el esofagograma y la endoscopia son muy sugestivos, por la imagen clásica que se muestra en las figuras 1 y 2. Es relevante señalar la importancia de no realizar, en tumores resecables, biopsia de ningún tipo que lesione la mucosa para poder extirparlos extramucoso, tal y como se hizo en los siete casos que no requirieron esofagectomía.

El ultrasonido endoscópico hecho por un operador con experiencia, permitió confirmar el origen de la tumoración en la capa muscular del esófago, tal como ocurrió en los nueve casos en los que se realizó el estudio en el Centro de Detección Temprana de Cáncer de Cartago. La duda generada en los tres casos cuando la lesión era muy grande, fue la posible malignidad, aunque en el servicio no se ha presentado ningún caso de leiomiomas esofágicos, por lo que esta lesión resulta ser mucho más infrecuente.

La tendencia del tumor es comprimir la luz esofágica y causar obstrucción, lo que se manifiesta por disfagia, y esta fue la indicación de cirugía en siete pacientes. En tres casos el tumor creció hacia fuera de la pared; en uno de ellos alcanzó aproximadamente 8 cm y en la TAC se presentó como tumor de mediastino posterior.

La enucleación del tumor se efectuó en siete casos, sin ninguna complicación. La esofagectomía realizada en tres casos se acompañó, en uno, de una pequeña fuga anastomótica que no causó mayor morbilidad, y los dos pacientes que presentaron infecciones respiratorias egresaron en el décimo y doceavo día postoperatorio, en buenas condiciones.

Se concluye que la cirugía de los tumores submucosos del esófago, cuando se estudia y maneja adecuadamente en el preoperatorio, se puede realizar sin mayor morbilidad, y que en ninguno de los casos estudiados se presentaron complicaciones ni recidivas hasta la fecha de la revisión.

Bibliografía

1. Punpale A, Rangole A, Bhambhani N, Karimundackal G, Desai N, de Souza A, Pramesh CS, Jambhekar N, Mistry R. Leiomyoma of Esophagus. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2007; 13:78-81.
2. Saleh W, Bamasa A, Al-Mutairi H, Al-Kattan K. Thoracoscopic enucleation of esophageal leiomyoma in patient with MEN I syndrome. *Ann Thoracic Med* 2010; 5:47-49.
3. Yang P.S., Lee K.S., Lee S.J., Kim T.S., Choo I.W., Shim Y.M., Kim K., Kim Y. Esophageal Leiomyoma: Radiologic Findings in 12 Patients. *Korean J Radiol* 2001; 2:132-137.
4. Loviscek L.F., Yun J.H., Park Y.S., Chiari A., Grillo C., Cenoz M.C. Leiomioma de esófago. *Cir Esp*. 2009; 85: 147-51.
5. Boran C., Sengul N., Balaban Y.H., Gürel S. Multinodular leiomyoma of the esophagus with internodular hydropic degeneration and bulbous serosal protrusions similar to cotyledonoid uterine leiomyoma. *Diseases of the Esophagus* 2007; 20:187-189.
6. Okugawa Y., Mohri Y., Toyama Y., Yokoe T., Ohi M., Tanaka K., Uchida K., Shiraishi T., Kusunoki M. Multiple Solitary Leiomyomas in the Esophagus: Report of a Case. *Surg Today*. 2011; 41: 563-567.
7. Obuchi T., Sasaki A., Nitta H., Koeda K., Ikeda K., Wakabayashi G. Minimally invasive surgical enucleation for esophageal leiomyoma: report of seven cases. *Diseases of the Esophagus*. 2010; 23: E1-E4.
8. Asteriou C., Konstantinou D., Lalountas M., Kleontas A., Setzis K., Zafiriou G., Barbetakis N. Nine year experience in surgical approach of leiomyomatosis of esophagus. *World J Surg Oncol* 2009; 7: 102.
9. Jiang G., Zhao H., Yang F., Li J., Li Y., Liu Y., Lui J., Wang J. Thoracoscopic enucleation of esophageal leiomyoma: a retrospective study on 40 cases. *Diseases of the Esophagus*. 2009; 22: 279-283.
10. Schorlemmer G., Battaglini J., Murria G. The Cervical Approach to Esophageal Leiomyomas. *Ann Thoracic Surg* 1983; 35: 469-472.
11. Li Z.G., Chen H.Z., Jin H., Yang L.X., Xu Z.Y., Liu F., Yao F. Surgical treatment of esophageal leiomyoma located near or at the esophagogastric junction via a Thoracoscopic approach. *Diseases of the Esophagus* 2009; 22: 185-189.
12. Zaninotto G., Portale G., Costantini M., Rizzetto C., Salvador R., Rampado S., Pennelli G., Ancona E. Minimally invasive enucleation of esophageal leiomyoma. *Surg Endosc* 2006; 20: 1904-1908.
13. Dapri G., Himpens J., Ntounda R., Alard S., Dereeper E., Cadiere G.B. Enucleation of a leiomyoma of the mid-esophagus through a right thoracoscopy with the patient in prone position. *Surg Endosc*. 2010; 24: 215-218.
14. Wang L., Fan C.O., Ren W., Zhang X., Li Y.H., Zhao X.Y. Endoscopic dissection of large endogenous myogenic tumors in the esophagus and stomach is safe and feasible: A report of 42 cases. *Scandinavian Journal of Gastroenterology*. 2010; 46: 627-633.
15. DeUgarte D., Teitelbaum D., Hirschl R., Geiger J.D. Robotic Extirpation of Complex Massive Esophageal Leiomyoma. *J Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques*. 2008; 18: 286-289.
16. Slessor A.A.P., Shaw I. A Large Esophageal Leiomyoma. *International Journal of Surgical Pathology* 2009; 17: 401.
17. Gupta V., Lal A., Sinha S.K., Nada R., Gupta N.M. Leiomyomatosis of the Esophagus: Experience over a Decade. *J Gastrointest Surg*. 2009; 13: 206-211.