

“Hospital Clínico Quirúrgico “General Freyre de Andrade”

Leiomioma gigante del esófago. Presentación de un caso

Giant esophageal leiomyoma. A case report.

Autores

Tomás Ariel Lombardo Vaillant⁽¹⁾ <https://orcid.org/0000-0001-6426-0643>

Leopoldo de Quesada Suarez⁽²⁾ <https://orcid.org/0000-0002-8187-2729>

¹Doctor en Ciencias Médicas. Máster en Educación Médica. Especialista de II Grado en Cirugía. Profesor Titular. Investigador Auxiliar. Hospital Clínico Quirúrgico Gral. Freyre de Andrade. La Habana

²Especialista de I Grado en Cirugía. Máster en Educación Médica. Máster en Urgencias Médicas. Profesor Auxiliar. Hospital Clínico Quirúrgico Gral. Freyre de Andrade. La Habana

.

Correspondencia: Tomás Ariel Lombardo Vaillant. Hospital Clínico Quirúrgico Gral. Freyre de Andrade. La Habana, Cuba. Email: lombardovaillan@infomed.sld.cu; tomariel57@gmail.com

Teléfono 7764 3677 móvil 54 600186

RESUMEN

Los leiomiomas esofágicos gigantes son neoplasias raras con un curso clínico impreciso, la mayoría se originan en la porción media e inferior del órgano. Para identificar el diagnóstico y tratamiento adecuado se utilizan pruebas de imágenes y endoscópicas. Compartir y divulgar un nuevo reporte de leiomioma esofágico gigante es el propósito de este trabajo, basado en un nuevo caso. El paciente ingresó por disfagia, las pruebas para el diagnóstico incluyeron radiografía de esófago, estómago y duodeno, endoscopia digestiva superior, tomografía axial computadorizada y resonancia magnética nuclear. El paciente se sometió a cirugía mediante toracotomía derecha, se realizó enucleación de un tumor de 10 x 6 x 5 cm, se constató integridad de la mucosa. No hubo evidencias de malignidad en el estudio histopatológico. Fue dado de alta ocho días después de cirugía. La toracotomía con enucleación del tumor esofágico es un procedimiento eficaz para tratar a pacientes con leiomioma gigante.

PALABRAS CLAVE: Tumor esofágico benigno; enucleación, leiomioma esofágico, toracotomía.

ABSTRACT

Giant leiomyomas are rare benign esophageal neoplasms with an indolent clinical course, the most of leiomyomas originate on the distal and midthoracic esophagus. To identify diagnosis and comprehensive treatment it is used image and endoscopic procedures. To share and disclose a new report of a giant esophageal leiomyoma is the purpose of the present work, based on a new case. The patient was admitted for dysphagia, the diagnostic workup included barium swallow, upper gastrointestinal endoscopy, computed tomography and nuclear magnetic resonance. The patient underwent surgery through right thoracotomy, enucleation of a tumour sized 10 x 6 x 5 cm and esophageal mucosa integrity was verified. There was no malignancy evidence in the histopathological study. Was discharged eight days after surgery. Thoracotomy with tumour enucleation is an effective procedure for dealing patients with giant esophageal leiomyoma.

KEY WORDS: Benign esophageal tumour; enucleation; esophageal leiomyoma; thoracotomy

Introducción

Los tumores benignos de esófago son poco frecuentes, constituyen menos del 1 % de las neoplasias de este órgano, de ellos el leiomioma es el más común, representa más del 90 %, mientras que el resto son pólipos y quistes.¹

La localización más frecuente de los leiomiomas es la porción media y distal del esófago, con predominio en esta última región.² Otra de sus características es ser tumores únicos, no obstante, pueden ser múltiples en 5 % de los pacientes.³

Los síntomas de los leiomiomas de esófago por lo general transcurren durante largo tiempo, no son específicos ni se relacionan con el tamaño del tumor, muchos son asintomáticos. Cuando aparecen se manifiestan como: disfagia, acidez, regurgitación, dolor retroesternal y pérdida de peso.³

Los leiomiomas gigantes -mayores de 10 cm- pueden producir obstrucción del esófago, disfunción del cardias e incluso síntomas respiratorios por compresión de vías aéreas.^{3, 4}

La baja incidencia de leiomiomas gigantes de esófago hace de su manejo un reto. El desarrollo de procedimientos diagnósticos que permiten su identificación y diferenciación, y la variedad de técnicas quirúrgicas, constituyen motivo de estudio para diversos autores.⁵⁻⁹

Compartir y divulgar un nuevo reporte de esta infrecuente pero compleja entidad es el propósito de este trabajo, basado en un caso de leiomioma gigante operado con evolución satisfactoria.

CASO CLINICO

Hombre de 60 años de edad admitido en el Servicio de Cirugía del Hospital Clínico Quirúrgico "Gral. Freyre de Andrade" de La Habana por presentar en los últimos cinco meses historia de disfagia y dificultad respiratoria después de actividad física de moderada intensidad. El paciente refiere pérdida de peso de 3 kg en ese tiempo. No refiere comorbilidad previa. Niega hábitos tóxicos y alergias. No transfusión sanguínea. Sin elementos de interés al examen físico del paciente.

Pruebas realizadas al ingreso

Hemoglobina (Hb) 11 g/dl Glucemia 5 mmol/L Creatinina sérica 1,2 mg/dL

Proteínas totales 7 g/dL Albúmina sérica 3,8 g/dL

Coagulograma completo

Tiempo de coagulación 7,5 min; tiempo de sangrado 2,0 min; coágulo retráctil;
conteo de plaquetas 200×10^9 /L

Grupo sanguíneo 0 Factor RH (negativo)

Electrocardiograma. Ritmo sinusal

Pruebas funcionales respiratorias

Volumen espiratorio forzado en 1 segundo (FEV₁) 85 %

Capacidad Vital (CV) 5L

Volumen de Reserva Espiratoria (VRE) 1,4 L

Relación Volumen Espiratorio Forzado/Capacidad Vital [FEV₁/ CVF] 90 %

Conclusión: Tolera toracotomía

Hemogasometría arterial y ionograma: pH 7,35 EB 1,5 mmol/L SB 22 mmol/L

HbO₂ 97 % pCO₂ 35 mm Hg Pa O₂ 97 mm Hg

Na 135 mEq/L Cl 98 mEq/L K 3,3 mEq/L

Procederes diagnósticos específicos

Radiografía de tórax simple antero-posterior. No se identificaron alteraciones pleuropulmonares ni mediastinales.

Esofago-gastro-duodenoscopia superior (EGD). Revela una protuberancia de proyección posterior entre los 25 y 30 cm de la arcada dental con conservación de la mucosa esofágica delgada y discretamente hiperémica.

Radiografía de esófago-estómago y duodeno (EED). Muestra por encima del tercio medio del esófago ligera distensión por debajo de la cual se constata defecto de lleno cóncavo con superficie mucosa lisa que impresiona compresión de la luz esofágica extrínseca o tumor submucoso del tercio medio del esófago de posible etiología benigna (Figura 1).



Figura 1. Radiografía contrastada de esófago estómago y duodeno. Compresión esofágica extrínseca en tercio medio que desplaza hacia adelante el órgano. Se conserva integridad de la mucosa esofágica.

Tomografía axial computadorizada (TAC) muestra una opacidad de tejido blando bien circunscrita de densidad homogénea localizada en el tercio medio del esófago torácico (Figura 2).

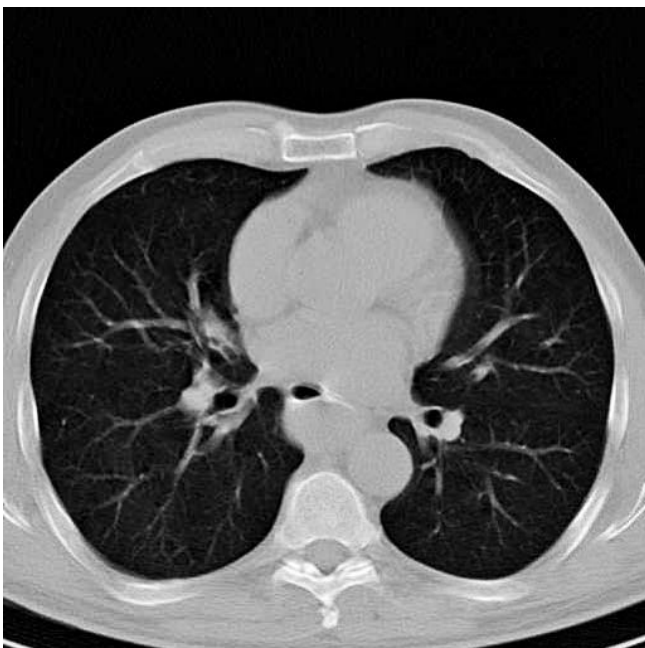


Figura No 2. Tomografía axial computadorizada confirma masa tumoral bien demarcada con atenuación homogénea en el mediastino posterior.

Resonancia magnética nuclear (RMN). Se realizó corte sagital y coronal que proporcionó mejor definición de los tejidos blandos dando información acerca del nivel de la lesión, su relación con órganos vecinos y la no existencia de metástasis (Figura 3).

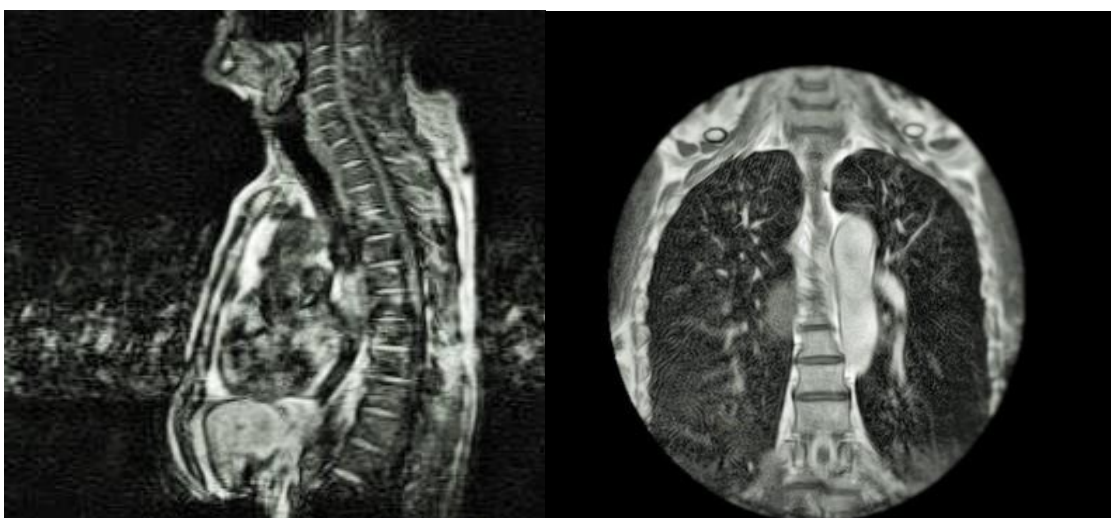


Figura 3. Resonancia magnética nuclear que confirma masa tumoral de mediastino posterior en la proyección de la bifurcación traqueal

Acto operatorio

Se colocan vendas elásticas en las extremidades inferiores, antibióticos y heparina a dosis profiláctica. Se instaura anestesia general endotraqueal, se utiliza tubo de doble luz.

Paciente en decúbito lateral izquierdo, incisión de toracotomía posterolateral a nivel del 6to espacio intercostal derecho de aproximadamente 20 cm. Se revisa cavidad torácica, no se encuentran adenopatías mediastinales y se procede a liberar ligamento triangular del pulmón, se abre la pleura mediastínica encima de la masa mediastinal posterior que se corresponde con un tejido elástico de consistencia firme, de bordes bien definidos, multilobulado en la pared posterior y lateral del esófago, se carga el esófago con sondas torácicas por encima y por debajo del tumor. (Figura 4).

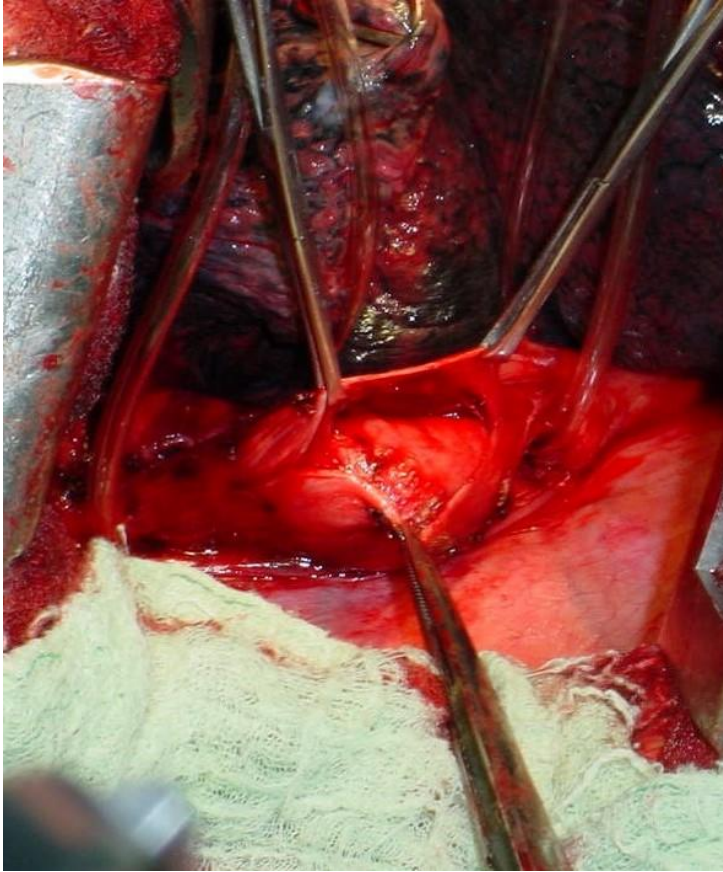


Figura 4. Hallazgo intraoperatorio. Disección cortante y roma durante el procedimiento quirúrgico

Se realiza apertura de la capa muscular y se comienza la enucleación del tumor encapsulado con disección roma y cortante. Posteriormente, para verificar la integridad de la mucosa esofágica, se retira la sonda de Levine hasta el esófago y se insufla aire con la cavidad torácica llena de solución salina, se evidencia que no existe daño de la mucosa, posterior a lo cual se sutura la capa muscular con puntos de colchonero con material absorbible a mediano plazo.

Se colocan sondas de drenaje por contra abertura a nivel del 9no espacio intercostal línea axilar posterior y 7mo espacio, se reexpande el pulmón previo al cierre de la cavidad torácica. Pérdidas hemáticas aproximada de 60 mL.

Después de resecado el tumor (Figura 5) se envía a Anatomía Patológica que informa un tumor de 10 x 6 x 5 cm y en cortes de congelación, no encuentran evidencias de malignidad. Cierre de la cavidad torácica.



Figura 5. Apariencia macroscópica del tumor. El tumor resecado elástico y polilobulado, medida 10 x 6 x 5 cm

El curso posoperatorio transcurrió durante las primeras 72 h en la Unidad de Cuidados Intensivos sin eventos significativos. Se restablece vía oral a las 24 h con líquidos y en días subsiguientes, sólidos. Deambulación precoz y uso de analgésicos. Las sondas torácicas se retiraron al 4to día. Egreso al 8vo día del posoperatorio con remisión de los síntomas. El informe final de Anatomía Patológica fue de leiomioma esofágico.

Discusión

La edad promedio de incidencia del leiomioma esofágico es aproximadamente entre los 40 y 60 años con un ligero predominio en el sexo masculino.¹⁰

El diagnóstico de certeza de leiomioma esofágico no se realiza en la mayor parte de los enfermos a su llegada. Se puede presentar con síntomas vagos

en un paciente con una masa mediastinal en una radiografía de tórax, como un hallazgo incidental.¹¹

El diagnóstico diferencial incluye compresión por enfermedad extrínseca al esófago, tumor maligno esofágico como carcinoma escamoso, leiomioma, tumores del estroma gastrointestinal (infrecuente en esófago) y otros tumores benignos.^{3, 5, 11}

Hay una gama de posibles procedimientos diagnósticos de imágenes (área de rápido desarrollo en la medicina) y endoscópicos, que se adicionan al cuadro clínico, para definir la etiología de la lesión. En este paciente se realizó una imagen radiológica simple de tórax y una serie de EED para iniciar el estudio.

La serie de EED es una prueba no invasiva de alta sensibilidad, no obstante, no se puede dejar de pensar en el diagnóstico diferencial con el carcinoma esofágico, 50 veces más frecuente que el leiomioma.¹²

Se incluyó en su estudio la TAC contrastada y la RMN, útiles en el estudio de lesiones mediastinales; mientras que la TAC en tercera dimensión con esofagografía contrastada y la tomografía por emisión de positrones (TEP) son también herramientas útiles que se realizan en centros de alto nivel.¹²

La TAC permite identificar posibles metástasis en tumores malignos, diseminación de tumor a otros tejidos, fistulas broncoesofágicas, pleuroesofágicas y aortoesofágicas, así como compresión externa por adenopatías, entre otras alteraciones.¹²

Los leiomiomas gigantes se identifican en la TAC como una masa con crecimiento extraluminal homogénea y circunscrita que ocasionalmente presenta calcificaciones, lo cual es muy raro en otras lesiones esofágicas submucosas.¹²

La RMN, que utiliza campos magnéticos, proporciona mejor definición de los tejidos blandos y resolución espacial que la TAC, es diagnóstica en cáncer de esófago, tumores benignos y hernias hiatales.¹² Ambas pruebas proporcionaron información útil acerca de las características de un tumor que ocupaba mediastino posterior en el caso en estudio.

La TEP es una técnica tridimensional de diagnóstico por imagen, tiene la ventaja de dar información adicional sobre el tumor, su progresión y las metástasis, es útil fundamentalmente en el estudio y evaluación de lesiones malignas. ¹³

Con relación a las pruebas de imágenes, área de rápido desarrollo en la medicina, los autores de este artículo consideramos acertado el criterio de Vasykivskyi V V *et al*, cuando plantean que no hay signos específicos para el diagnóstico de leiomioma, sino que es la utilización de varias pruebas en conjunto lo que supera la predicción en el diagnóstico. ¹⁴

La EGD mostró características de una lesión submucosa, esta prueba permite además identificar la presencia de más de un leiomioma. De 39 pacientes con leiomioma, en 11 de ellos Yun-Xi *et al* logran identificar además de la lesión submucosa, estenosis del esófago. ¹⁵.

La ecografía esofágica intraluminal (EEI) es útil e indispensable en tumores pequeños. No solo muestra la lesión dentro de la pared esofágica, tamaño, localización (plano de *muscularis mucosae* o *muscular propria*) sino sus relaciones con los órganos vecinos, lo que es de gran valor clínico para determinar el tratamiento óptimo dependiendo de estas características. Hay consenso de que es la prueba más exacta para diagnosticar leiomioma esofágico. ^{8, 15,16}

Esta prueba también proporciona información sobre las características ultrasonográficas que orientan al diagnóstico diferencial de leiomioma esofágico ^{16, 17} En un interesante estudio Copidelly *et al* identifican que el EEI resultó una prueba de elevada certeza diagnóstica con un valor predictivo positivo de 68 % y un valor predictivo negativo de 100 % para leiomioma o tumor estromal, comparado con la biopsia operatoria.⁵

En el paciente que se reporta no se realizó biopsia preoperatoria. Esta prueba es un tema de debate en el leiomioma esofágico, se plantea que puede provocar una fuga esofágica o fístula a órganos contiguos con riesgo potencial de mediastinitis. Se considera además que se pueden producir, durante la cirugía, daños en la mucosa por adherencias entre la superficie de punción y el tumor subyacente. ¹⁸

Hay quien afirma que la aspiración con aguja fina no proporciona suficiente material para establecer un diagnóstico histopatológico preciso. El alto riesgo de complicaciones como hemorragia y hematoma en contraposición al beneficio para el paciente con leiomioma esofágico, hace que no sea recomendable llevar a cabo este procedimiento diagnóstico.⁷

El leiomioma gigante debe ser extirpado una vez diagnosticado. Las opciones de cirugía abierta comprenden: toracotomía, laparotomía o combinación de ambas para conseguir su enucleación o resección esofágica con interposición de intestino delgado o colon, cuando no es posible preservar el esófago.¹⁵

En la enucleación del tumor gigante –propósito principal de la cirugía- después de realizada la misma se debe cerrar el plano muscular para prevenir hernia de la mucosa y preservar la actividad propulsora. En los casos asociados a atrofia de la capa muscular se debe reparar con un colgajo de pleura, omento o pericardio. Otro detalle técnico interesante es asociar a la enucleación un proceder anti-reflujo en los leiomiomas del tercio inferior del esófago.¹⁰

En el transcurso de la cirugía el grupo quirúrgico tiene que realizar biopsia transoperatoria, por la probabilidad de encontrar focos de malignización en el interior del tumor que hagan modificar el plan inicial.^{10, 19}

Desde finales de los años noventa del pasado siglo se vienen implementando procedimientos, con entusiasmo progresivo, de rápido desarrollo, como la toracotomía video-asistida (TVA). Resulta un cambio de paradigma, pero plantea aspectos no resueltos como la propia dimensión del tumor a enuclear y las dificultades que enfrenta el cirujano para identificar un plano de clivaje entre el tumor y la submucosa esofágica.^{4, 8, 20}

Del mismo modo, la cirugía robótica video-asistida (CRVA) –todavía pendiente de mayor evidencia- plantea sus cultores, que supera a la TVA, pues con esta, los ángulos y las dimensiones de los espacios intercostales limitan el movimiento, sutura y disección, mientras que con la CRVA se sobrepasan estas limitaciones. La CRVA mantiene los beneficios de la TVA sin comprometer las ventajas de la cirugía abierta como habilidad, precisión y destreza.^{21, 22}

Los procederes endoscópicos intraluminales –que desbordan los límites de este trabajo- se desarrollan de modo progresivo. Aun tienen aspectos no resueltos; como la imposibilidad de resecaer tumores grandes, la incidencia de

complicaciones relacionadas con la disección endoscópica y el bajo grado de resección en bloque.^{5, 6}

El leiomioma esofágico gigante, entidad poco frecuente, se diagnostica mediante la sospecha clínica y el apoyo de estudios de imágenes y endoscópicos de alta tecnología. La cirugía es perentoria, la toracotomía abierta con biopsia transoperatoria y resección adecuada a las particularidades del tumor es un proceder efectivo para el manejo de esta entidad.

Referencias bibliográficas

1 Shin S, Choi YS, Shim YM, Kim HK, Kim K, Kim J. Enucleation of Esophageal Submucosal Tumors: A Single Institution's Experience. *Ann Thorac Surg* 2014; 97: 454-459.

2 Tsai SJ, Lin CC, Chang CW, Hung CY, Shieh TY, Wang HY *et al.* Benign esophageal lesions: endoscopic and pathologic features. *World J of Gastroenterology* 2015; 21(4):1091-8. DOI: 10.3748/wjg.v21.i4.1091

3 Ramos D, Priego P, Coll M, Comejo MA, Galindo J, Rodriguez G *et al.* Comparative study between open and minimally invasive approach in the surgical management of esophageal leiomyoma. *Rev Esp Enferm Dig* 2016; 108(1):8-14.

4 Torre W, Tamura A, Fernández A. Leiomioma esofágico: resección por videotoracosopia. A propósito de un caso. *Anales Sis San Navarra* 2012; 35(2):30-35.

5 Codipilly DC, Fang H, Alexander JA, Katzka DA, Ravi K. Subepithelial esophageal tumors: a single-center review of resected and surveilled lesions. *Gastrointest Endosc* 2018 Feb; 87(2):370-377. doi: 10.1016/j.gie.2017.07.043.

6 Kim SY, Kyoung-Oh K. Treatment of Subepithelial Tumors. *Clin Endosc* 2018 Jan; 51(1): 19–27. doi: 10.5946/ce.2018.020

7 Kohli DR, Faigel DO. Esophageal leiomyomas: Making mole hills out of mole hills? *Gastrointest Endosc* 2018 Feb; 87(2):378-379. doi: 10.1016/j.gie.2017.08.028.

8 Faulx AL, Kothari S, Acosta RD, Deepak A. The role of endoscopy in subepithelial lesions of the GI tract. *Gastrointest Endosc* 2017; 85:1117-32.

9 Chen X, Xi Y, Wang H, Tan L. Minimally invasive surgery for giant esophageal leiomyoma: a case report & review of the literatures *J Thorac Dis* 2017; 9(1):E26-E31 doi: 10.21037/jtd.2017.01.34

10 Sun X, Wang J, Yang G. Surgical treatment of esophageal leiomyoma larger than 5 cm in diameter: A case report and review of the literature. *J Thorac Dis* 2012; 4(3): 323-26. DOI: 10.3978/j.issn.2072-1439.2011.11.02

11 Punpale A, Rangole A, Bhambhani N, Karimundackal G, Desai N, de Souza A *et al.* Leiomyoma of Esophagus *AnnThorac Cardiovasc Surg* 2007; 13: 78–81.

12 Yoon J H *Benign Tumors of the Esophagus*. En: Choi BI, editor. *Radiology Illustrated: Gastrointestinal Tract, Radiology Illustrated*. Seoul: Springer-Verlag; 2015. p. 31-40 DOI 10.1007/978-3-642-55412-4_3

13 Nakamoto Y, Togashi K, Kaneta T, Fukuda H, Nakajima K, Kitajima K *et al.* Clinical Value of Whole-body FDG-PET for Recurrent Gastric Cancer: A Multicenter Study *Jpn J Clin Oncol* 2009; 39(5): 297 – 302.

14 Vasylykivskiy VV, Getman VG. Diagnosis of esophageal leiomyomas *Klinicheskaiakhirurgija* 2018; 85(8):26-29 DOI: <https://doi.org/10.26779/2522-1396.2018.08.26>

15 Yun-Xi W, Jing Z, Yi L, Yang L, Xiang-Yang Ch, Zhong-Sheng L *et al.* Diagnosis and comprehensive treatment of esophageal leiomyoma: clinical analysis of 77 patients. *Int J Clin Exp Med* 2015; 8(10):17214-17220.

16 Chao González Lissette, Torres Hernández Yoandra Ester, Barroso Márquez Lisset, Cepero Valdés Manuel, Cepero Nogueira Manuel. Value of endoscopic ultrasound in diagnosis of subepithelial lesions of the gastrointestinal tract. *Rev Cubana Cir [Internet]*. 2018 Dic [citado 2019 Jul 15]; 57(4): e760. Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0034-74932018000400006&lng=es.

17 Ling-Jia S, Chen X, Yi-Ning D, Cheng-Fu X, Feng J, Li-Hua Ch *et al.* Endoscopic Ultrasonography in the Diagnosis and Treatment Strategy Choice of Esophageal CLINICS 2017; 72(4):197-201 DOI: 10.6061/clinics/2017(04)01

18 Asteriou C, Konstantinou D, Lalountas M, Kleontas A, Setzis K, Zafiriou G *et al.* Nine years experience in surgical approach of leiomyomatosis of esophagus. World J Surg Oncol 2009; 7: 102-8.

19. Fu KI, Muto M, Mera K. Carcinoma coexisting with esophageal leiomyoma. Gastrointest Endosc 2002; 56:272-3.

20 Khalailah A, Savetsky I, Adileh M, Elazary R, Abu-Gazala S, Abu-Gazala A *et al.* Robotic-assisted enucleation of a large lower esophageal leiomyoma and review of literature Int J Med Robotics Comput Assist Surg 2013; 9: 253–257. DOI: 10.1002/rcs.1484

21 Compean SD, Gaur P, Kim MP. Robot assisted thoracoscopic resection of giant esophageal leiomyoma. Int J Surg Case Rep 2014; 5:1132-4.

22 Inderhees S, Tank J, Stein HJ, Dubecz A. [Leiomyoma of the esophagus: A further indication for robotic surgery?] Chirurg 2019 Feb; 90(2):125-130. doi: 10.1007/s00104-019-0792-9.

Contribución de cada autor

Dr. C Tomas Ariel Lombardo Vaillant

- ✓ Idea del proyecto de investigación por su importancia para el cirujano novel y el gremio de cirujanos en general
- ✓ Confección del borrador
- ✓ Revisión y redacción del informe final
- ✓ Aprobación del documento final

Dr. Leopoldo de Quesada Suárez

- ✓ Revisión de la literatura en las fuentes de información y bases de datos Medline. Revisión en Google, aporte de la bibliografía
- ✓ Revisión de las referencias por el formato de Vancouver en el informe final
- ✓ Confección del borrador
- ✓ Aprobación del documento final

Conflicto de intereses. Ninguno

Financiamiento externo: Ninguno