

## TUMOR ADENOMATOIDE EN TROMPA DE FALLOPIO. PRIMER CASO PUBLICADO EN LA REPUBLICA DOMINICANA

\* Dr. Michel Kourie F.

\*\* Dr. Roberto Logroño D.

El hallazgo inesperado de un tumor asintomático en trompa de Fallopio, en una mujer cesareada, y su posterior diagnóstico de Tumor Adenomatoide, nos indujo a revisar la literatura internacional acerca de tan excepcional caso, constatando como esperábamos la rareza estadística del mismo. Las revisiones bibliográficas y consultas a otros Patólogos realizadas en nuestro medio no nos permitieron encontrar un caso similar.

En más de 45,000 biopsias revisadas en los hospitales "Dr. Salvador B. Gautier", IDSS y Militar, FAD, "Dr. Ramón de Lara", no encontramos este tipo de tumor a nivel de la trompa, aunque el grupo de patólogos del Hospital Gautier ha encontrado en el pasado dos casos (no publicados) a nivel del epidídimo. En la literatura dominicana Díaz González y Col. publican un caso localizado en el epidídimo.<sup>1</sup>

La publicación de nuestro caso tiene como finalidad familiarizar a la clase médica, en particular a Ginecólogos y Cirujanos, acerca de este tipo de lesión, su rareza, su manejo y su significación.

### Presentación de caso

Se trata de una mujer, dominicana, de 36 años, a la que se le practica una cesárea por un embarazo distócico, no teniendo antecedentes patológicos de interés. Durante la intervención (realizada por el Dr. Martínez Calderón), al efectuarse la inspección de los anexos, se constata tumoración nodular en el centro de la trompa izquierda, que en ningún momento había sido sintomática.

(\*) Profesor de Anatomía Patológica de la Universidad Nacional Pedro Henríquez Ureña.

(\*\*) Residente de Patología del Saint Barnabas Medical Center. Livingston, New Jersey. USA.

Se reseca la trompa, la cual macroscópicamente lucía normal, excepto por el nódulo que medía 1.1 cm, que nacía de la pared y se proyectaba al exterior. Microscópicamente la trompa lucía bien estructurada con neoformación localizada, caracterizada por la presencia de estructuras tubuliformes tapizadas por epitelio muy aplanado, en un estroma conectivo-muscular.

### Sinonimia

Adenocarcinoma de bajo grado,<sup>2-3</sup> Adenofibroma, Adenoma, Adenomioma, Angiomioma, Epitelioma del conducto mesonéfrico, Fibromio-adenoma, Hamartoma del mesonefro, Leiomioma, Linfangioma, Linfoma, Mesenquimoma mulleriano benigno, Mesotelioma,<sup>4</sup> Mioma linfangiectásico, Reticulo-endotelioma linfático, Tumor angiomaticoideo.<sup>5</sup>

Esta larga y variada sinonimia debido a la dificultosa interpretación histopatogénica.

### Histogenesis

Algunos autores piensan que la génesis de este tumor es epitelial (mulleriana),<sup>6-7-8-9-10-11</sup> pudiendo estar relacionada con la génesis del Adenocarcinoma tubárico.<sup>9</sup> También se plantea origen mesotelial y de vestigios mesonéfricos.<sup>4-12-13-14-15-16-17-18</sup> El hallazgo de ácido hialuronidasa sensitiva mucopolisacárido entre las células, túbulos y espacios quísticos es similar a la encontrada en los mesoteliomas peritoneales.<sup>19</sup> La combinación de mesotelioma papilar y Tumor Adenomatoide del epiplón es un aporte adicional a esta teoría.<sup>20</sup> Sin embargo, la ausencia de estructuras papilares en genitales hace pensar que el tejido mesotelial del peritóneo es diferente al genital.

El tumor ha sido considerado por algunos de origen endotelial y otros como Linfangioma. La localización en

cuerno uterino y trompa solamente y no en cuello-vagina va contra de esa hipótesis. Golden y Ash<sup>5</sup> establecen que el endotelio no está presente en la luz de los acinos y las células aplanadas bordeantes son de grueso uniforme, mientras que las epiteliales son fusiformes con núcleos prominentes centrales.

Marcus y Lynn<sup>16</sup> comparan la ultraestructura del Tumor Adenomatoide con el Hemangioma, Linfangioma y Tumores mesoteliales, siendo imposible la distinción morfológica entre sus células. Ellos tratan de comparar las principales características del Tumor Adenomatoide del tractus genital femenino con los tumores del mesotelio peritoneal. Concluyen que no hay aspectos ultraestructurales de distinción entre Tumor Adenomatoide y Mesotelioma, ni tampoco pueden establecer distinciones entre origen mesotelial y mulleriano.

El término adenomatoide surge por investigaciones recientes ultraestructurales que define la histogénesis mesotelial.<sup>21-22</sup> Igualmente estudios con la técnica de la inmunoperoxidasa buscando la presencia de antígeno de membrana epitelial (E.M.A.) y Factor VIII relacionado con antígeno y queratina, mostraron fuerte reactividad para el E.M.A. y queratina relacionando con antígeno y el factor VIII negativo. Por estos resultados se soporta el origen mesotelial de estos tumores.<sup>23-24</sup>

#### Incidencia

Es considerado un tumor raro del aparato genital femenino,<sup>11-13-14-15-18-25</sup> siendo en la trompa de excepcional aparición, así como lo es el Carcinoma a ese nivel que casi nunca es observado.<sup>26</sup> Sin embargo, Green y Pauers-tein<sup>27-28</sup> lo consideran el tumor benigno más común de la trompa. Young y col.<sup>29</sup> en una serie de 29 casos encuentran 13 en el útero y 16 en la trompa. Rimmel<sup>30</sup> revisa de 200 a 300 casos de localización general en mujeres, de los cuales menos de 100 eran genitales.

Revisando la literatura encontramos la incidencia siguiente a nivel de la trompa:

Hasta 1939 Wainer encuentra 8 casos; Ragins y Crane<sup>10</sup> hasta 1948 reportan 6 casos; Horn y Lewis<sup>14</sup> hasta 1951 ven 11 casos (de 26 del total en aparato genital femenino); Jackson<sup>7</sup> encuentra 13 casos hasta 1958 (de 135 casos en epidídimo, cordón espermático, túnica testicular, trompa, útero y ovario); Teel<sup>17</sup> citado por Duarte y Col.<sup>31</sup> hasta 1958 encuentra 33 casos; Guzki y Lindecke hasta 1973 reportan 90 casos.

#### Localización general del Tumor Adenomatoide en área genital de ambos sexos

En el caso masculino el Tumor Adenomatoide se localiza mayormente en polo inferior del epidídimo (particularmente en cola),<sup>32</sup> siendo más raro en la cabeza, testículo y

vaginal. Raramente se observa en vejiga urinaria (Ashey en 1978). Rimmel<sup>30</sup> en 7 años encontró 12 casos en todo el tractus genital femenino en 8,000 histerectomías y 300 miomectomías. Guzki en su serie a nivel del aparato genital femenino encontró: 49% en fondo uterino; 42% en trompas; 6% en ovarios y 3% en ligamento ancho-parametrio.

#### Edad

El Tumor Adenomatoide en su localización general se ve con mayor frecuencia en la mujer vieja y en hombres jóvenes.

La edad reportada en casos localizados en la trompa oscila de 25 a 86 años para algunos autores y para Young<sup>29</sup> de 30 a 72 años con una media de 42 años.

#### Sexo

La mayoría de los casos reportados de Tumores Adenomatoide en general ha afectado al sexo masculino. La ocurrencia en ambos sexos hace unificar los conceptos histogénéticos, correlacionándose por características clínicas, microscópicas, histoquímicas y ultraestructurales.<sup>30</sup>

#### Evolución

El crecimiento del Tumor Adenomatoide en trompa es lento. Raramente se asocia a Salpingitis Crónica, Embarazo Ectópico Tubárico,<sup>33</sup> Pólipos de mucosa tubárica,<sup>33</sup> Leiomiomas,<sup>33</sup> Fibromiomas<sup>33</sup> y Quiste Dermoide ovárico.<sup>33</sup>

#### Raza

No hay predilección racial.

#### Sintomatología

Nula. Hallazgo incidental en autopsias y cirugía ginecológica por otras causas.<sup>28</sup> No produce problemas de fertilidad. En un 10% se han encontrado antecedentes de inflamación pélvica.

#### Pronóstico

Siempre este tumor ha sido considerado benigno,<sup>28-29</sup> aunque ocasionalmente ha tenido comportamiento maligno.<sup>18-14-34</sup> En la serie de 17 pacientes de Young<sup>29</sup> no ha habido recurrencias ni metástasis, por lo que lo consideran benigno. Navratil describe un caso de asociación de Tumor Adenomatoide y de Adenocarcinoma en la trompa.

#### Macroscopía

No presenta predilección por ningún lado de la trompa y en una paciente de 31 años fue bilateral.<sup>29</sup> El tumor es



FIG. No. 1. Aspecto macroscópico del Tumor Adenomatoides de nuestra paciente, con típico aspecto nodular.

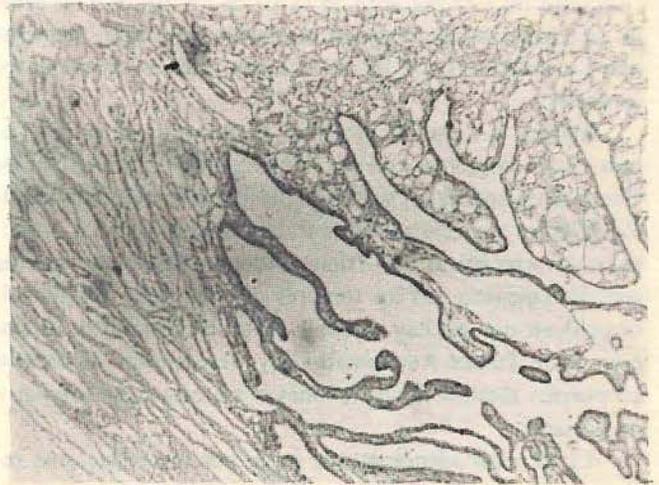


FIG. No. 2. Aspecto microscópico del endosalpinx con parte de la lesión tumoral. H & E. 40 x.

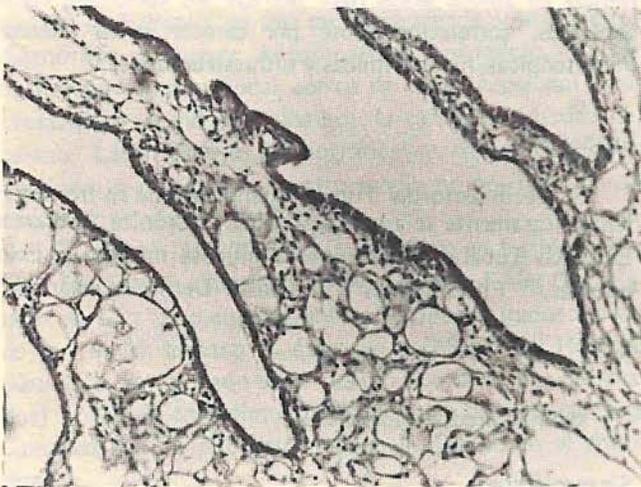


FIG. No. 3. Mismo aspecto a mayor aumento donde se aprecian mejor los detalles del endosalpinx. H & E. 100 x.

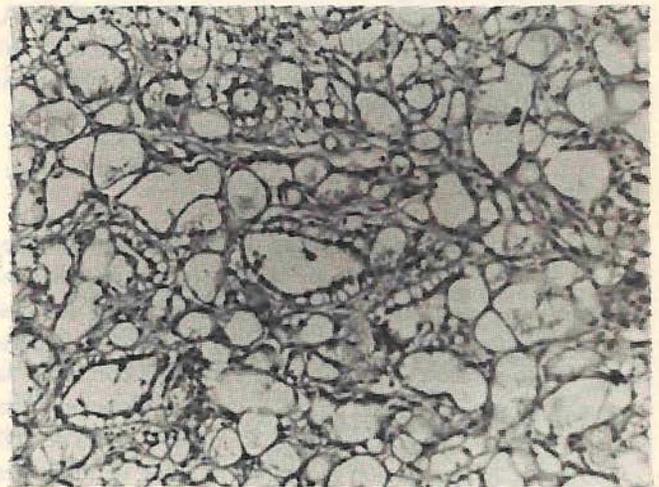


FIG. No. 4. Aspecto tubular en un estroma conectivo-muscular. Se notan algunas estructuras tapizadas por células en "anillo de sello". H & E. 100 x.

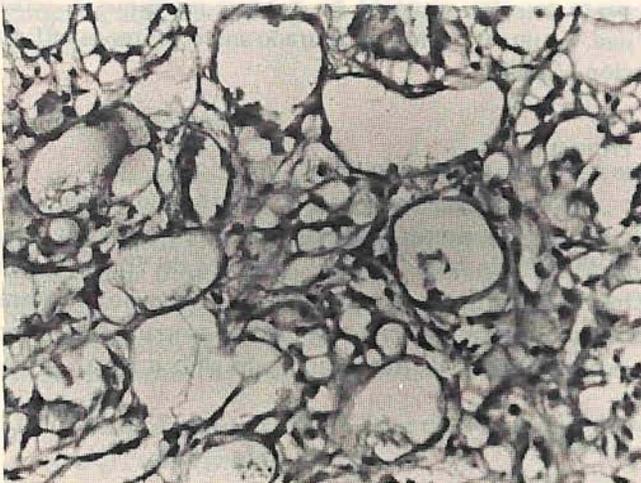


FIG. No. 5. Mismo aspecto que el anterior a mayor aumento. H & E. 200 x.

redondo, ovoide o fusiforme.<sup>30</sup> Tiene consistencia gomosa y localización intramural, pudiendo comprimir la luz, aunque puede ser subseroso en el istmo.

El tamaño medio oscila entre 0.5 y 1.7 cm (Garska considera que nunca pasa de 2.5 cm de diámetro). Las lesiones uterinas son más grandes midiendo de 0.7 a 7 cm de diámetro.

Al corte son amarillos o anaranjados o grisáceos-blancos, con ocasional aspecto arremolinado.

#### Microscopía

El cuadro microscópico de este tumor puede ser de varios aspectos, lo que ha suscitado clasificaciones de los

distintos aspectos histológicos. En términos generales vamos a encontrar:

A) Células epiteliales aplanadas o cúbicas o cilíndricas,<sup>30</sup> que van a formar cordones o túbulos. El citoplasma es abundante y eosinofílico, siendo en ocasiones vacuolado formando células en "anillo de sello" que son PAS negativas.<sup>25-35</sup> Los núcleos son redondos u ovalados, excéntricos,<sup>34</sup> con cromatina fina y dispersa, presentando nucleolo prominente. El estroma conectivo es escaso y contiene colágeno, fibras elásticas y de reticulina,<sup>30</sup> conteniendo en ocasiones mastocitos. Presenta ocasionalmente hialinización y en una oportunidad osificación. Hay fibras musculares lisas en el 70% y acumulos linfocitarios con posible formación de folículos en el 80%.<sup>35-36</sup>

B) Aspectos en panal de abejas con pequeñas cavidades quísticas bordeadas por células aplanadas.

C) Combinaciones de las dos anteriores.

Rommel<sup>26</sup> describe tres tipos histológicos:

1) Sólido; 2) Macroglandular; 3) Microglandular.

Taxi<sup>35</sup> describe también tres formas microscópicas:

1) Plexiforme, con nidos y cordones de células epitelioideas redondas, núcleo vesicular y citoplasma eosinofílico vacuolado.

2) Tubular, con células cuboidales que bordean espacios de tamaño variable con desplazamiento ocasional del núcleo a la luz dando aspecto de herradura.

3) Canalicular, con espacios canaliculares bordeados por células aplanadas del tipo endotelial.

Gaska por su parte describe:

1) Forma túbulo-canalicular de tipo adenomatoide, típico en la trompa.

2) Forma microquística de tipo linfangioma.

3) Forma mixta.

Las dos últimas formas habituales de localización uterina.

Jackson<sup>7</sup> a su vez considera las siguientes formas:

1) Tubular o canalicular

2) Cordones sólidos

3) Pequeños grupos celulares.

Lee<sup>15</sup> por su parte distingue:

1) Formas canaliculares

2) Formas tubulares

3) Formas plexiformes.

En todas las formas histológicas la continuidad entre la serosa y las estructuras epiteliales sólo se encontró en un caso.<sup>22</sup> La presencia de músculo liso en estos tumores podría explicarse por el crecimiento de un tumor no encapsu-

lado en un órgano muscular por inclusión, siendo considerado como un componente habitual por muchos autores.<sup>4-6-7-15-37</sup> Las localizaciones en el útero simularon miomas subserosos y en una ocasión intramural.<sup>7-37</sup>

Se han observado aspectos angiomatosos con nódulos linfoideos, lo que ha conllevado a considerarlos como Linfangiomas.<sup>35-38</sup> El aspecto epitelial de algunas células ha sido interpretado como proliferación endotelial relacionada con el sistema vascular, siendo considerada como "formaciones angiomatoideas".<sup>39</sup> Algunos autores como Pauerstein<sup>28</sup> han comparado la microscopía de estos tumores con la "salpingitis itsmica nodosa".

#### Histoquímica<sup>23-35</sup>

En estos tumores se han obtenido los siguientes resultados histoquímicos:

- 1) Colorantes para mucina: Sólo encontrado positivo en dos casos y débilmente en células bordeantes.
- 2) Colorantes para glicógeno: Negativo usando PAS con o sin digestión diastasa.
- 3) Alcian Blue: Fuertemente reactivo en las células, luz de canalículos, túbulos y vacuolas intracitoplasmáticas de las células dispuestas en nidos sólidos. También en el estroma.
- 4) Tinciones para fibras de reticulina: Se observa fina red de reticulina rodeando las células de cada espacio glandular.
- 5) Tricómico de Masson: Mayor concentración del colágeno en periferia tumoral, siendo más esparcida en el centro.
- 6) PTAH: Numerosas fibras positivas en áreas plexiformes, con mayor capacidad de tinción en márgenes.

#### Resumen

Se presenta un caso de Tumor Adenomatoide en trompa de Fallopio, encontrado en una mujer cesareada por embarazo distócico, siendo una lesión raramente reportada en la literatura internacional, la cual fue revisada por nosotros en New York.

Indagaciones al respecto en nuestro medio no nos permiten encontrar un caso similar en República Dominicana, por lo que presumimos podría ser el primero reportado en nuestro país.

#### BIBLIOGRAFIA

- (1) Díaz, F.E.; Martínez, J.A.; Rodríguez, N.; Cabrera, D.C. & Coss, M.A.: Tumor Adenomatoide de Epidídimo, Presentación de un caso, revisión de la literatura. *Ucemed*, Vol. 2, No. 2, 1983, 38-40.
- (2) Hinman, F. & Gibson, T.E.: Tumors of the epididymis, spermatic cord, and testicular tunics. A review of the literature and report of three new cases. *Arch. Surg.*, 8: 100-138, 1924.

- (3) Thompson, G.J.: Tumors of the spermatic cord, epididymis, and testicular tunics. Review of literature and report of forty-one additional cases. *Surg. Gynec. Obst.*, 62: 712-728, 1936.
- (4) Masson, P.; Riopelle, J.L., & Simard, L.C.: Le mesotheliome benin de la sphere genitale. *Rev. Canad. Biol.*, 1: 720-751, 1942.
- (5) Golden, A. & Ash, J.E.: Adenomatoid tumors of the genital tract. *Am. J. Path.*, 21: 63-79, 1945.
- (6) Efskind, J.: Primary tumors of fallopian tubes. *Arch. Gynaec.* 118, 224-228, 1928.
- (7) Jackson, J.R.: The histogenesis of the "adenomatic" tumor of the genital tract. *Cancer.* 11: 337, 1958.
- (8) Leach, W.B.: Adenomatoid tumor of the fallopian tube associated with chronic salpingitis. Report of a case. *Am. J. Clin. Path.*, 20: 970-973, 1950.
- (9) Mullaney, P.J.: Adenomatoid tumor of the fallopian tube. *Irish J. Med. Sci.* 427: 309-10, 1961.
- (10) Ragins, A.B. & Crane, R.D.: *Am. J. Path.* 24: 933, 1948, citado por Mullaney P.J.
- (11) Sundarasivarao, D.: The Mullerian vestiges and benign epithelial tumors of the epididymis. *J. Path. Bact.*, 1953, 66, 517.
- (12) Evans, N.: Mesothelioma of the epididymis and tunica vaginalis. *J. Urol.* 50: 249-254, 1943.
- (13) Fajer, C.M.: Mesotheliomas of the genital tract (A report of five new cases and survey of literature). *Acta path. microbiol. Scandinav.* 1949, 26, 1.
- (14) Horn, R.C. & Lewis, G.C.: Mesothelioma of the female genital tract. Review of the literature and report of five cases involving the uterus. *J. Clin. Path.* 1951, 21, 251.
- (15) Lee, M.J. jr., Dockerty, M.M., Thompson, G.J. & Waugh, J.M.: Benign mesothelioma (Adenomatoid tumors) of the genital tract. *Surg. Gynec. & Obst.*, 1950, 91, 221.
- (16) Marcus, J.B. & Lynn, J.A.: Ultrastructural comparison of an Adenomatoid tumour, Lymphangioma, Hemangioma and Mesothelioma. *Cancer* 25: 171-175, 1970.
- (17) Teel, P.: Adenomatoid tumors of the genital tract with special reference to the female. *Am. J. Obst. & Gynec.* 75: 1347, 1958.
- (18) Teilum, G.: Histogenesis and classification of mesonephric tumors of the female and male genital system and relationship to benign so called adenomatoid tumors (mesotheliomas). A comparative histological study. *Acta Path. a. Microbiologica Scandinavica.* 1954, 34, 431.
- (19) Winslow, D.J. & Taylor, H.B.: Malignant peritoneal mesotheliomas. A clinico-pathological analysis of 12 fatal cases. *Cancer* 13: 127-136, 1960.
- (20) Hanrahan, J.B.: A combined paillary mesothelioma and adenomatoid tumor of the omentum. Report of a case. *Cancer* 16: 1497-1500, 1963.
- (21) Mackay, B.; Bennington, J.L., & Shoglund, R.W.: The Adenomatoid tumor. Fine structural evidence for a mesothelial origin. *Cancer.* 27: 109-115, 1971.
- (22) Salazar, H.; Kanbour, A., & Burgess, F.: Ultrastructure and observations on the histogenesis of mesotheliomas: "adenomatoid tumors" of the female genital tract. *Cancer* 29, 141-151, 1972.
- (23) Bonetti, F.; Chilosis, M.; Loddo, G.; Zamboni, G.; Pea, M. & Menestrina, F.: Adenomatoid tumor: immunohistochemical demonstration of epithelial membrane antigen (E.M.A.) *Pathologica*, 76, (1041), 15-19, 1984.
- (24) Mukai K.; Rosai J.; Burdgorf. W.H.C.: Localization factor VIII-related antigen in vascular endothelial cells using an immunoperoxidase method. *Am. J. Surg. Pathol.* 4, 273-276, 1980.
- (25) Bolton, R.N. & Hunter, W.C.: Adenomatoid tumor of the uterus and anexa. *Am. J. Obst. & Gynec.*, 1958, 76, 647.
- (26) Remotti, G. & Frangipani, G.: Tumore Adenomatoido della salpinge. *Ann. Obst. Ginec.* 1965. VII. Anno LXXXVII.
- (27) Green, T.H. & Scully, R.E.: *Clin. Obst. & Ginec.*, 5: 886, 1962.
- (28) Pauerstein, C.J.; Woodruff, J.D. & Quinton, S.W.: Developmental patterns in "adenomatoid lesion" on fallopian tube. *Am. J. Obst & Gynec.* Vol. 100, No. 7, 1968.
- (29) Rimmel, W. & Lewin, J.: Adenomatoidtumoren des weiblichen, *Arch. Gynaekol.* 215: 359-408, 1973.
- (30) Duarte, E.; Días, L.B. & De Paola, D.: Adenomatoid tumor of the tube, Hospital (Rio). 59: 1095-9, Jan. 1961.
- (31) Kothare, S.N.: Adenomatoid tumour. A report of two cases. *Singapore Med. J.* Vol. 100, No. 7, 1981.
- (32) Honore, L.H. & Korn, G.W.: Coexistence of tubal ectopic pregnancy and adenomatoid tumor. *J. Reprod. Med.* Vol. 17, No. 6, 1976.
- (33) Kasdon, E.J.: Malignant mesothelioma of the T. Vaginalis proposita. *Cancer* 23: 1144-1150, 1969.
- (34) Kermauner, F.: Lymphangiom der tube, *Arch. Gynaek.* 83: 411-421, 1907.
- (35) Youngs, L.A. & Taylor, H.B.: Adenomatoid tumor of the uterus and fallopian tube. *Am. J. Clin. Pathol.*: 48: 537-545, 1967.
- (36) Sanes, S. & Warner, R.: Primary lymphangioma of the fallopian tube. *Am. J. Obst. Gynec.* 37-316, 1939.
- (37) Morehead, R.P.: Angiomatoid formations in the genital organs with and without formation. *Arch. Path.*, 42: 56-63, 1946.
- (38) Sanes, S., and Warner, R.: Primary lymphangioma of the Fallopian tube. *Am. J. Obst. Gynec.* 37-316, 1939.
- (39) Morehead R.P.: Angiomatoid formations in the genital organs with and without formation. *Arch Path* 42: 56-63, 1946.