

Hemangioma cavernoso del mesosigmoide: informe de un caso y revisión de la bibliografía

Cavernous hemangioma of the mesosigmoid: a case report and literature review

Dr. C. Ibraín Rodríguez Rodríguez, MSc. Dr. René Borges Sandrino, Dr. Elianne Barroso Rosales, Dr. Wilfredo Ernesto Santiesteban Pupo, Dr. Yoan Gabriel Rodríguez Martínez, MSc. Dr. Midalys Casa de Valle Castro

Hospital Militar Central "Dr. Carlos J. Finlay". La Habana, Cuba.

RESUMEN

Se informa un caso de hemangioma cavernoso del mesosigmoide, su presentación clínica, diagnóstico y tratamiento, y se ofrece una revisión de la literatura asequible sobre el tema, para lo cual se realizó una búsqueda en las bases de datos de Medigraphic, Cochrane, Medline y PubMed. El paciente es un hombre de 72 años de edad, que se presentó con dolor abdominal, estreñimiento, pérdida de peso y masa tumoral en la fosa ilíaca izquierda. A pesar de las investigaciones imaginológicas y endoscópica, no se pudo hacer el diagnóstico preoperatorio. Se trató por laparotomía y resección del tumor, y el diagnóstico se confirmó por estudio histopatológico. El hemangioma cavernoso del mesosigmoide es un tumor raro, difícil de diagnosticar preoperatoriamente, a pesar de las avanzadas técnicas imaginológicas. La escisión quirúrgica y el examen histológico pueden ser los únicos medios para el diagnóstico.

Palabras clave: hemangioma cavernoso, mesosigmoide, tumor abdominal, diagnóstico por imágenes.

ABSTRACT

This article reported a case of cavernous hemangioma of the mesosigmoid, its clinical presentation, diagnosis and treatment. It also offered literature review on

this topic for which search into the Medigraphic, Cochrane, Medline and Pubmed databases was made. The patient was a 72 years-old man that went to the hospital with abdominal pain, constipation, loss of weight and tumor mass in the left iliac cavity. Despite imaging and endoscopic research, it was not possible to reach diagnosis preoperatively. He underwent laparotomy and tumor resection and the final diagnosis was confirmed in the histopathological study. The cavernous hemangioma of the mesosigmoid is a rare tumor difficult to preoperatively diagnose despite the advanced imaging techniques. Surgical excision and histological exam are the only means to reach diagnosis.

Keywords: cavernous hemangioma, mesosigmoid, abdominal tumor, imaging diagnosing.

INTRODUCCIÓN

Los hemangiomas son neoplasias vasculares que virtualmente pueden encontrarse en toda la estructura humana. Son tumores benignos que se originan de remanentes embrionarios de células angioblásticas unipotenciales. Aunque pueden producirse en cualquier sitio dentro del abdomen, incluyendo los órganos sólidos, las vísceras huecas, los ligamentos y la pared abdominal, el hígado es el sitio de localización más frecuente. Sin embargo, es extremadamente raro que estos tumores se originen del mesenterio o epiplón. Los aislados casos informados en la bibliografía dan como sitios de origen el mesenterio del intestino delgado, el epiplón mayor, el ligamento gastroesplénico, el epiplón menor, el mesoapéndice y el mesocolon. Igualmente, en la bibliografía se recogen informes de casos de hemangiomas atípicos y poco frecuentes que fueron el resultado de una resección quirúrgica y cuyo diagnóstico solo se estableció por el estudio histopatológico.

Aunque poco frecuentes, los hemangiomas pueden producirse en el epiplón y en el mesenterio porque estos son restos derivados del mesoderma.^{1,2} En este artículo presentamos las características clínicas, el diagnóstico y el tratamiento de un hemangioma cavernoso que surgió del mesosigmoide en un hombre de 72 años de edad, y se hace una revisión sobre el tema en la bibliografía disponible.

CASO CLÍNICO

El paciente es un hombre, blanco, de 72 años, con antecedentes patológicos personales de bronquitis crónica (fumador inveterado), herniorrafia inguinal bilateral realizada en 1998 y prostatectomía por adenoma prostático realizada en el 2000. Consulta por pérdida de peso de más o menos 9,072 kg en un año y, desde hace 4 meses, dolor moderado en el cuadrante inferior izquierdo del abdomen. Le acompañan episodios de estreñimiento de 3 a 4 días y un aumento de volumen ligeramente doloroso con la presión, que luego de defecar disminuye de tamaño y que no se modifica con los esfuerzos físicos.

Al examen físico se advierte una cicatriz media infraumbilical de ± 8 cm, cicatrices de la inguinitomía bilateral, abdomen doloroso en el cuadrante inferior izquierdo, sin defensa ni irritación peritoneal. Se palpa una masa tumoral en la fosa ilíaca izquierda, de bordes reglares, dolorosa con la palpación profunda, poco movable, de ± 9 cm de diámetro. En el tacto rectal no se detectaron alteraciones. El resto del examen físico fue normal.

Los complementarios arrojaron los resultados siguientes:

- Radiografía de tórax: signos de enfisema pulmonar.
- Colonoscopia: normal.
- Ultrasonografía: vesícula con pequeño pólipo en la cara posterior, de 4 mm; no litiasis. Hígado normal. Riñón derecho con pequeño quiste parapiélico de 3 cm, sin litiasis ni ectasia. Riñón izquierdo normal. Páncreas, bazo y aorta normales. En el flanco izquierdo se observó una imagen ecolúcida o hipoecoica de paredes gruesas, con múltiples tabiques finos. Se encuentra en el retroperitoneo y mide 69 x 88 x 107 mm. No depende de ningún órgano vecino, ni tiene relación con las asas intestinales. No hay ascitis ni pseudoriñón (Fig. 1).
- Laboratorio: todos los exámenes fueron normales.
- Tomografía axial computarizada de abdomen intravenosa y simple: en el hipogastrio, por encima de la vejiga y en contacto con esta, se observa una imagen tumoral de contornos regulares que mide 131 x 74 x 67 mm, con densidad en el estudio simple de 24-62 UH, que se realza a 53-72 UH en la fase arterial; en la fase tardía se mantiene sin realce. Existe una lesión osteolítica a nivel de S2, que expande la cortical, pero no la rompe, que mide 61 x 37 mm y tiene una densidad de 20 a 6 UH. ¿Cordoma? Por la forma de la lesión tumoral, presenta características de benignidad (Fig. 2).

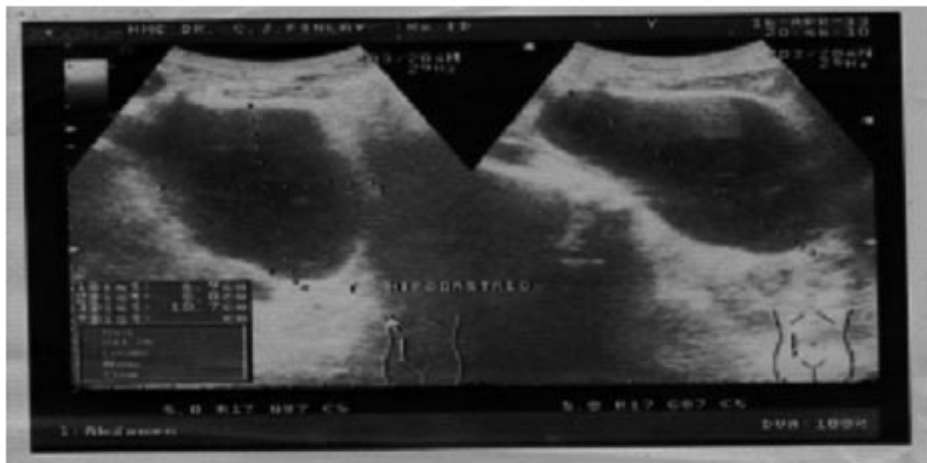


Fig. 1. Ultrasonografía abdominal: imagen ecolúcida de paredes gruesas, con múltiples tabiques finos, no dependiente de ningún órgano vecino y sin relación con las asas intestinales.

El tratamiento fue quirúrgico. Se practicó una laparotomía exploradora, y se encontró un tumor vascular, con signos de hemorragia intratumoral en el mesosigmoide y adherido a este último (Fig. 3). Se resecó el tumor conjuntamente con el segmento de sigmoide adyacente (Fig. 4) y se practicó una anastomosis término-terminal del colon sigmoide.



Fig. 2. Tomografía axial computarizada de abdomen intravenosa: imagen tumoral de contornos regulares, con realce en la fase arterial y sin realce en la fase tardía.



Fig. 3. Tumor vascular con signos de hemorragia, situado en el mesosigmoide y en íntimo contacto con el colon.



Fig. 4. Pieza quirúrgica: tumor resecado junto con el segmento de colon sigmoide.

El estudio anatomopatológico macroscópico mostró un fragmento de intestino de 17 x 7 cm y serosa violácea con apéndice epiploico. En el tercio medio se documentó una formación redondeada de 6 cm de diámetro, esponjosa, grisácea y con áreas de hemorragia. A la apertura del colon se halló la mucosa de aspecto normal que conservaba los pliegues y estaba normocoloreada. Al corte longitudinal, a nivel del tumor, este se encontraba separado de la serosa del intestino por una capa de tejido amarillento untuoso. El tumor ovoide midió 7,5 cm de diámetro, estaba encapsulado y en su interior tenía consistencia gelatinosa. Los extremos estaban sin alteraciones.

El estudio microscópico mostró tejido con formación de conductos vasculares cavernosos llenos parcialmente de sangre, bien delimitado y separado por un escaso estroma de tejido conjuntivo. No había mitosis ni atipia celular. No se detectaron signos que sugirieran malignidad. Estos hallazgos confirman el diagnóstico de hemangioma cavernoso (Fig. 5).

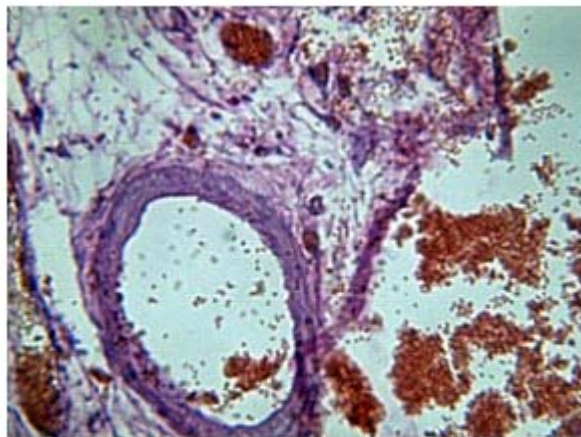


Fig. 5. Estudio histológico: tejido con formación de conductos vasculares cavernosos, llenos parcialmente de sangre, bien delimitados y separados por un escaso estroma de tejido conjuntivo.

El paciente evolucionó satisfactoriamente, y fue dado de alta a los 7 días de la operación.

DISCUSIÓN

Hay controversia en considerar los hemangiomas como malformaciones vasculares congénitas (hamartomas) o considerarlos verdaderas neoplasias. Los hemangiomas capilares se ajustan mejor a la definición de hamartomas o malformaciones vasculares congénitas, pero los hemangiomas cavernosos tienen un potencial de crecimiento independiente y regenerativo, lo que los hace verdaderas neoplasias.³ Habitualmente no están presentes, aunque sí lo están de forma premonitoria en el nacimiento. Durante 10 a 12 meses crecen por hiperplasia, y posteriormente involucionan de forma progresiva durante un periodo que puede llegar a durar entre 10 y 12 años. En cambio, las malformaciones vasculares, siempre presentes en el nacimiento, característicamente crecen por hipertrofia y nunca involucionan.⁴

Los hemangiomas son tumores benignos que pueden originarse en cualquier estructura del cuerpo humano. Desde 1839, cuando Phillips describió lo que se considera el primer caso de hemangioma colónico, se han informado aproximadamente 200 casos de hemangiomas gastrointestinales, pero solo unos pocos de estos se han originado en el mesenterio y parte del intestino. Head y cols., así como Abramson y Shandling, clasifican a los hemangiomas intestinales en tres categorías tomando como base su apariencia histológica: capilar, cavernoso y mixto.⁵⁻⁷ El tipo más frecuente es el hemangioma cavernoso, que microscópicamente se observa como estructuras azuladas púrpuras, blandas y compresibles, que surgen de grandes venas y arterias submucosas con lesiones de varios tamaños. Pueden manifestarse como lesiones circunscritas y pequeñas o con una afectación difusa y expansiva. Usualmente carecen de bordes bien delimitados. Una trombosis dentro de los sinusoides puede llevar a la hialinización y a calcificaciones (flebolitos), lo cual es altamente indicativo del diagnóstico.

Los hemangiomas en el mesenterio son infrecuentes. No hay predilección por algún sexo y se presentan en un amplio rango de edades (desde los 2 meses hasta los 79 años, según reportes de casos en la bibliografía), pero por lo general, se presentan alrededor de la tercera década de la vida. Son lesiones que varían desde tumores bien circunscritos hasta infiltrativos y amorfos, teniendo en cuenta que, debido a su naturaleza benigna, no invaden estructuras adyacentes ni se asocian a afectaciones metastásicas —a no ser que se asocie a una transformación maligna, la cual es rara—. Pueden surgir de cualquier localización del mesenterio, aun cuando la más frecuente es el mesenterio propio (del intestino delgado).^{7,8}

Según informes de la bibliografía de los últimos 10 años, estos tumores se han originado en el epiplón mayor, el ligamento gastroesplénico, el epiplón menor, el mesoapéndice, el mesocolon transverso y el retroperitoneo.^{1, 2, 5-17} Sin embargo, no encontramos informes sobre el hemangioma cavernoso del mesosigmoide, lo que permite plantear que mundialmente es una lesión muy rara y que, por lo general, se asocia con síntomas inespecíficos.¹

Los síntomas del hemangioma dependen de la localización del tumor primario. Los hemangiomas cavernosos de los epiplones, mesenterios y retroperitoneo son tumores sumamente raros, sobre los cuales se deben enfatizar las siguientes características: su diagnóstico preoperatorio es difícil; cuando el tumor es pequeño, no existen síntomas clínicos, y cuando este aumenta de tamaño, el paciente solo manifiesta distensión abdominal ocasional, la cual por lo general no se considera importante. Solo cuando está afectado el peritoneo, se presenta el dolor abdominal, por lo general sin síntomas de obstrucción intestinal.

El hemangioma cavernoso mesentérico puede presentarse con dolor y masa abdominal, síntomas gastrointestinales como sangramiento digestivo y síntomas inespecíficos, aunque se han informado casos asintomáticos.⁹ Se manifiesta como una masa palpable hasta en el 60 % de los casos, con dolor abdominal en el 55 %, o con sensación de plenitud en el 28 %. También puede ser diagnosticado incidentalmente por examen histopatológico después de resecar una masa sospechada por ultrasonografía (US), tomografía computarizada (TC), angiografía o resonancia magnética (RM).^{7, 11} En nuestro caso, el paciente se presentó con dolor abdominal, masa palpable y pérdida de peso. Menos frecuentemente pueden desencadenar hemoperitoneo.^{7,18}

El diagnóstico definitivo preoperatorio de un hemangioma mesentérico es casi imposible, por lo que puede constituir un desafío. La colonoscopia solo es de utilidad cuando la lesión afecta el intestino. En nuestro caso no fue útil, pues el tumor afectaba el mesosigmoide.

En la radiografía simple pueden observarse flebolitos, lo cual es típico en los hemangiomas. En estudios baritados se puede observar una lesión ocupante de espacio, con efecto de masa sobre las asas, asociada a los flebolitos. El estudio ecográfico muestra una masa sólida lobulada de ecogenicidad variable, homogénea o heterogénea (el caso que se informa tenía una imagen ecolúcida o hipoecoica, de paredes gruesas, con múltiples tabiques finos, retroperitoneal, no dependiente de ningún órgano vecino y sin relación con las asas intestinales. En cambio, en el examen con Doppler presenta ondas de alta velocidad sistólica y bajo índice de resistencia. Los estudios angiográficos pueden ser útiles para definir la localización y la irrigación tumoral.

La tomografía axial computarizada puede evidenciar la presencia de una masa con densidad de tejido blando, de contornos mal definidos y, a diferencia de los hemangiomas hepáticos —los cuales presentan realce globular centrípeto que se inicia desde fases tempranas, con realce persistente y tardío y bordes bien delimitados—, los hemangiomas primarios mesentéricos son de bordes mal definidos y no muestran patrón de realce arterial; típicamente realzan en la fase portal, y en fases tardías no evidencian una significativa retención del contraste. Además, pueden encontrarse focos de calcificaciones en el interior de la masa, indicativos de flebolitos, lo cual favorece el diagnóstico. En nuestro caso, se observó en el hipogastrio, por encima y en contacto con la vejiga, una imagen tumoral de contornos regulares que medía 131 x 74 x 67 mm, con densidad en el estudio simple de 24-62 UH, que se realizaba a 53-72 UH en la fase arterial y se mantenía sin realce en la fase tardía.

En la resonancia magnética, en secuencias con información en T1, se observa como una masa de baja a mediana intensidad al músculo, así como de alta intensidad de señal en secuencias con información en T2. Es posible demostrar heterogeneidad mediante tabiques fibrosos, estructuras vasculares, hemorragia o calcificaciones. En este caso no se realizó estudio de resonancia magnética.

A pesar de las avanzadas técnicas imaginológicas, usualmente no es posible diferenciar los hemangiomas del mesenterio de otras lesiones fibrosas de los demás tumores mesenquimatosos o de cualquier otra etiología, por lo cual es difícil su diferenciación preoperatoria.^{2,5-7,11,16,17,19} De acuerdo con la opinión de la mayoría de los autores, en el caso de los hemangiomas cavernosos no es aconsejable la toma de biopsias, dado que las técnicas de imagen son suficientes para llegar a un diagnóstico correcto y, por otro lado, el riesgo de sangrado al manipular esta lesión no es nada despreciable.^{2,6}

Una vez establecido el diagnóstico, debe recomendarse la extirpación de la lesión. El tratamiento de los hemangiomas primarios del mesenterio es quirúrgico, a través de la vía laparoscópica o abierta. La extirpación laparoscópica de esta lesión vascular es factible y tiene la ventaja de menor dolor y más rápida recuperación después de la cirugía. No se han informado casos de recurrencia posterior a la resección completa de la lesión.

Los otros medios terapéuticos no son aceptables en la actualidad (substancias esclerosantes, congelamiento, radioterapia de alto voltaje y aplicación local de radio). No se han reportado casos de recurrencia posterior a la resección completa de la lesión.

La confirmación del tumor puede realizarse solamente por estudios histopatológicos, que se caracterizan por la presencia de espacios vasculares sinusoidales, irregulares, bien delimitados, rodeados de tejido normal.^{2, 5-7, 19} En el caso del hemangioma cavernoso del mesosigmoide, se realizó la resección del

tumor conjuntamente con el segmento de intestino adyacente a través de una laparotomía, y se confirmó el diagnóstico mediante estudio histopatológico.

En conclusión, el hemangioma cavernoso del epiplón o mesenterio es un tumor raro que, a pesar de las avanzadas técnicas imaginológicas, puede ser muy difícil de diagnosticar en el preoperatorio. Como consecuencia de ello, este debe ser incluido en el diagnóstico diferencial de cualquier tumor que se asiente en el mesenterio o epiplón. La resección quirúrgica y el estudio histológico pueden ser el único medio para realizar el diagnóstico.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Ojili V, Tirumani SH, Guanabushanam G, *et al.* A pictorial review of unusual atypical and rare types. *Can Assoc Radiologist Journal.* 2013; 64 (1):18-27.
2. Chin KF, Khair G, Gabu PS and Morgan DR. Cavernous hemangioma arising from the gastro-splenic ligament: a case report. *World J Gastroenterol.* 2009; 15(30): 3831-3833: doi: 10.3748/wjg.15.3831.
3. Martínez Jaramillo C, Cepeda Vásquez, Reyes JC. Hemangioma cavernoso del recto: abordaje quirúrgico por vía laparoscópica. *Rev Col Gastroenterol.* 2008; 23(2): 160-4.
4. Redondo P. Clasificación de las anomalías vasculares (tumores y malformaciones). Características clínicas e historia natural. *An Sist Sanit Navar .* 2004; 27 (Supl. 1):9-25.
5. Kasimi M, Ulas M, Ibis C, *et al.* A rare cause of recurrent gastrointestinal bleeding: Mesenteric hemangioma. *World Journal of Emergency Surgery.* 2009; 4: 5; doi: 10.1186/1749-7922-4-5.
6. Estgarribia Mallada R, Peralta Ocampos A, Alonso Gutiérrez R. Hemangioma cavernoso del mesocolon transverso. Reporte de un caso clínico radiológico. *An Fac Cienc Med. (Asunción)* 2010; 43(1): 57-60.
7. Massaro M, Suárez T, Huertas C, Cuervo C. Hemangiomas mesentéricos. Presentación de cuatro casos. *Rev Colomb Radiol.* 2012; 23(3): 3541-5.
8. Suga H. A case of mesenteric cavernous hemangioma showing interestingly image study. *Nihon Sokakibyō Gakkō Zasshi.* 2005; 102(1): 31-6.
9. Ahmadnia H, Khooei A, Mansourian E. Mesenteric cavernous hemangioma in a cryptorchid man. *Saudi J Kidney Dis Transp.* 2011; 22: 812-4.
10. Takeda M. A case of a rapid growing retroperitoneal cavernous hemangioma that was difficult diagnose preoperatively. *J Jpn Surg Assoc.* 2009; 70: 1541-5.
11. He H, Du Z, Hao S, *et al.* Adult primary retroperitoneal cavernous hemangioma: a case report. *World J surg Oncol.* 2012; 10: 261-4.
12. Parker WT, Harper JG, Rivera DE, Holsten SB, Bowden T. Mesenteric cavernous hemangioma involving small bowel and appendix: A rare presentation of a vascular tumor. *Am Surgeon.* 2009; 75(9): 811-6.
13. Forbes TL. Retroperitoneal hemorrhage secondary to a ruptured cavernous hemangioma. *Can J Surg.* 2005; 48: 78-9.
14. Choi YS, Oh HK. Laparoscopic resection of a retroperitoneal hemangioma arising from ovarian vessels. *The Journal of Minimally Invasive Gynecology.* 2009; 16(6): 778-80.

15. Yui S, Zaisu M, Mikami K, *et al.* A case of incidentally found bilateral retroperitoneal cavernous hemangiomas. *Open Journal of Urology*. 2011;1:56-59; doi: 10.4236/oju.2011.13012.
16. Zeng Y, Wu H, Yang J. Small bowel autotransplantation combined with pancreatoduodenectomy for enormous cavernous hemangioma of the small intestine mesentery. *Cin Med J*. 2008;121(20):2110-2.
17. Cung JJ, Kim MJ, Lee JT, Yoo HS. Cavernous hemangioma arising from the lesser omentum: MR finding. *Abdominal Imaging*. 2000;25(5):542-4.
18. Ritossa C. Hemoperitoneum caused by cavernous angioma of the omentum. *Minerva Chir*. 1989;44:907-8.
19. Thambidorai CR, Wahab A, Hamzaini AH. Solitary mesenteric vascular anomaly presenting as acute abdomen. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2008;13(3):115-7.

Recibido: 25 de octubre de 2013.

Aprobado: 29 de octubre de 2013.

Dr. Ibrain Rodríguez Rodríguez. Hospital Militar Central "Dr. Carlos J. Finlay".
Avenida 31 y calle 114, Marianao. La Habana, Cuba. Correo electrónico:
ibrahimrguez@infomed.sld.cu