

# Hemangioma de ovario con luteinización estromal

Ignacio González  
Blanco<sup>1</sup>  
M<sup>a</sup> Concepción  
Velasco<sup>2</sup>  
Eva Martín<sup>1</sup>  
M<sup>a</sup> Jesus Macías<sup>1</sup>  
Ana B. Rodríguez  
Bújez<sup>1</sup>  
Beatriz Madrigal<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Servicio  
de Obstetricia  
y Ginecología

<sup>2</sup>Servicio de anatomía  
Patológica

## Resumen

El hemangioma ovárico es un tumor benigno extremadamente infrecuente que se origina en los vasos sanguíneos del mesénquima inespecífico. Son tumoraciones que mantienen su etiopatogenia en el terreno de las hipótesis y que afectan a las mujeres en cualquier década de su vida. El tamaño es muy variable, la forma de presentación clínica suele ser bastante anodina y a veces se diagnostican como un hallazgo ocasional.

En algunas pacientes, el crecimiento del hemangioma provoca la luteinización del estroma ovárico circundante. Esta acción puede inducir una síntesis hormonal de andrógenos y estrógenos que pudiera manifestarse clínicamente.

El tratamiento siempre es quirúrgico y es la base para realizar un diagnóstico certero, ya que se necesita un eficaz estudio histológico para poder definir esta lesión tumoral.

**Palabras clave:** Hemangioma. Tumor ovárico. Estroma luteinizado.

## Summary

The ovarian hemangioma is a benign extremely infrequent tumor that originates in the blood vessel of the unspecific mesenchima. They are tumours that support their etiopathogenesis in the field of the hypotheses and that affect the women in any decade of their life. The size is very changeable, the form of clinical presentation is in the anodyne habit and sometimes they are diagnosed as an occasional find.

In some patients, the growth of the hemangioma provokes the luteinization of the surrounding ovarian stromal. This action can induce a hormonal synthesis of androgens and estrogens that one could demonstrate clinically.

The treatment always is surgical and it is the base to realize an accurate diagnosis, since an effective histological study is needed to be able to define this tumoral lesion.

**Key words:** Hemangioma. Ovarian tumor. Stromal luteinization.

## Introducción

Los tumores vasculares localizados en el ovario continúan siendo excepcionalmente infrecuentes a pesar de que su primera descripción fue realizada en 1869 por Payne<sup>1</sup>.

El hemangioma es un tumor benigno derivado del mesénquima inespecífico del ovario, es decir, se origina de los vasos sanguíneos de los tejidos de sostén comunes a la mayor parte de los órganos, motivo por el cual puede aparecer a cualquier edad de la vida de una mujer.

Hasta el presente año únicamente estaban descritos 50 casos en la literatura científica. Esta nimia incidencia disminuye aún más si el hemangioma se asocia a un proceso de luteinización del estroma ovárico circundante, como ocurre en nuestro caso, ya que según Miliaras y hasta el año 2001, solo estaban documentados 6 casos<sup>2</sup>.

Los hemangiomas son tumores habitualmente diagnosticados en la piel, cabeza y cuello, pero son muy escasos a nivel del aparato genital, a pesar de la rica y compleja vascularización de los anejos de la mujer.

Han sido referidos hemangiomas de muy diferente tamaño, habitualmente son diagnosticados como tumoraciones quísticas cuando tienen la suficiente entidad para ser visualizados durante una exploración ecográfica ginecológica. Los hemangiomas ováricos de pequeño volumen representan de forma usual un hallazgo ocasional durante un estudio de autopsia por otros motivos<sup>3,4</sup>.

Los hemangiomas se pueden originar en cualquiera de las partes que conforman la estructura normal del ovario, no obstante y debido a su más rica vascularización, la zona medular e hiliar son las localizaciones más comunes<sup>5</sup>.

Correspondencia:  
I. González Blanco  
Antonio Royo Villanova, 4 2<sup>o</sup>C.  
47014 Valladolid  
E-mail:  
nagblanco@mixmail.com

## Caso clínico

Mujer de 65 años de edad.

- *Antecedentes familiares:* Madre fallecida por cáncer de endometrio, hermano fallecido por cáncer de laringe y otro hermano fallecido por cáncer de pulmón.
- *Antecedentes personales:* Obesa, esofagitis y reflujo gastroesofágico, hepatitis C contagiada en una transfusión postparto. Apendicectomizada, biopsia de mama derecha por nódulo palpable con resultado de fibroadenoma.
- *Antecedentes obstétrico-ginecológico:* Menarquia a los 11 años. Menopausia a los 51 años. Paridad: 7-1-0-6 (eutócicos).
- *Enfermedad actual:* la paciente es derivada por el Médico de familia a la consulta de ginecología por presentar desde hace dos meses un dolor continuo en hipogastrio y con irradiación hacia zona lumbar, además, mantiene polaquiuria y tenesmo vesical.

A la exploración física se observa un cérvix atrófico de múltipara y se palpa un fondo de saco de Douglas doloroso y ocupado por una masa de consistencia elástica no bien delimitada.

En la ecografía ginecológica vaginal se describe la existencia de una masa retrouterina, abigarrada y con ecogenicidad mixta de 9 x 8 cm de diámetro que puede corresponder con una tumoración maligna del ovario izquierdo. Utero en anteversión, atrófico y regular, con un hidrometra de 8mm. Ovario derecho no se visualiza. Ligera cantidad de ascitis.

Analítica hemática y coagulación dentro de la normalidad. Marcadores tumorales CEA: 1,4 ng/ml (0-5), CA 12.5: 87 U/ml (0-35). Los niveles séricos de estrógenos, andrógenos y progesterona no fueron evaluados de forma prequirúrgica, sin embargo se encontraban dentro del rango de la normalidad en el postoperatorio precoz.

Con el diagnóstico de masa anexial sospechosa de malignidad se propone a la paciente la realización de una laparotomía exploradora. Se practica una anexectomía izquierda como biopsia intraoperatoria y se informa como tumoración quística serosa benigna con signos de torsión. Se completa la cirugía mediante una histerectomía subtotal con anexectomía derecha.

La pieza extirpada se corresponde macroscópicamente con una formación tumoral de 9 cms de eje máximo, de superficie externa rojiza con áreas amarillen-

tas y consistencia blanda. Tiene un contenido líquido fluctuante por zonas. Al abrirse se identifica una zona quística con paredes lisas, sin mamelones ni papilas y con contenido hemorrágico. El resto del tejido es sólido de color rojo brillante y aspecto hemorrágico, se reconocen superficialmente restos de parénquima ovárico normal con lesiones estrelladas amarillentas a modo de cuerpos lúteos o pequeños folículos atrésicos.

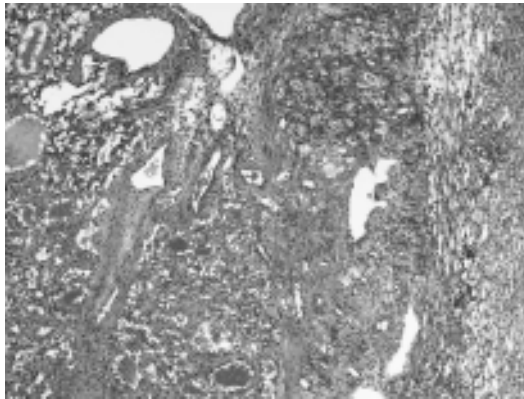
Al corte seriado del resto de la pieza se identifica una zona de transición entre la zona sólida y la hemorrágica y en la pared quística una segunda cavidad irregular con contenido hemorrágico y superficie interna lisa de color amarillo (Figura 1).

Microscópicamente se observa una tumoración ovárica mixta, en donde se define una pared conectiva con restos de cortical ovárica, grupos de células luteinizadas y una proliferación difusa de luces vasculares, separadas por estroma conectivo. Tiene endotelios únicos de núcleo prominente sin atipia y hematíes en la luz. (Figura 2). La pared interna del quiste carece de revestimiento epitelial, se continúa

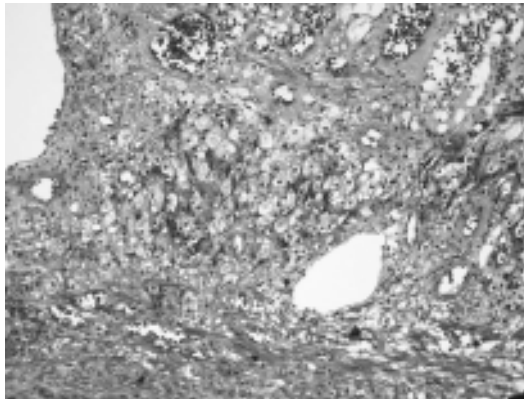


Figura 1.  
Aspecto macroscópico de la tumoración seriada con ambos componentes quístico y sólido

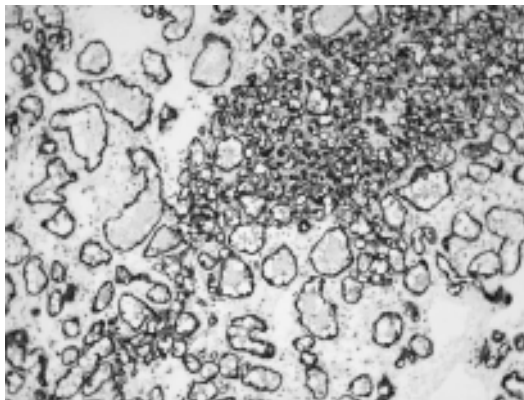
*Figura 2.*  
*Panorámica de la lesión*  
*Cortical ovárica con*  
*acúmulos de células*  
*luteínicas en continuidad*  
*con las luces vasculares*  
*H&E x25*



*Figura 3.*  
*Componente vascular*  
*con zona estromal*  
*luteinizada. Tinción*  
*tricrómica de Masson*  
*Histoquímica x45*



*Figura 4.*  
*Tinción específica*  
*del endotelio*  
*vascular CD34*  
*Inmunohistoquímica x45*



con el componente sólido de la tumoración que aparece formada por una proliferación difusa de luces vasculares semejantes entre sí, de pequeño tamaño, con paredes delgadas y gruesas separadas por estroma

conectivo y con endotelios de núcleos únicos o prominentes que se apoyan en paredes vasculares a veces hialinizadas. En la luz vascular hay hematíes. En la cortical ovárica, en el intersticio y entre las luces vasculares se observan frecuentemente acúmulos irregulares de células de aspecto luteinizado de amplio citoplasma con bordes definidos eosinófilos, sin evidencia de inclusiones cristalinas y núcleo redondeado o elongado de cromatina uniforme y pequeño nucléolo.

Con la tinción tricrómica de Masson se reconoce en la cortical la interconexión entre los acúmulos de estas células luteinizadas y las luces vasculares, situándose ambos en la cortical ovárica. (Figura 3). El endotelio vascular expresa CD34, CD31, actina y vimentina. (Figura 4) Es negativo para EMA, CD7, CD20 y S100. Los receptores estrogénicos (RE) y de progesterona (RP) tienen positividad focal citoplasmática en los nódulos estromales. Las queratinas de alto y bajo peso molecular tienen positividad focal periférica y son negativas en la pared vascular. El índice de proliferación es bajo <2%.

En el espesor del miometrio uterino se reconocen dos pequeños focos angiomatoides con luces vasculares semejantes a los descritos en la tumoración del ovario. En el ovario contralateral no se observaron lesiones de interés patológico.

El diagnóstico histológico corresponde a un *hemangioma de ovario con estroma luteinizado* y angiomatosis intramural miometrial.

## Discusión

La verdadera etiopatogenia de estos tumores permanece aún sin dilucidar. Se especula que pudieran originarse desde un fallo en el proceso de canalización de los vasos sanguíneos, es decir, se propone que los hemangiomas del ovario son malformaciones congénitas que pueden estimular su crecimiento durante los embarazos, bajo tratamientos hormonales mantenidos o con determinado tipo de infecciones. Otros estudios suponen que son procesos tumorales de tipo hamartomatoso o verdaderas neoplasias derivadas de una sola línea de células germinales, esto es, un teratoma maduro con diferenciación hemangiomatosa.

Finalmente, existen grupos de trabajo que mantienen que el hemangioma se desarrollaría secundariamente a la producción hormonal estrogénica ocasionada por una hiperplasia estromal, una hipertecosis

o una luteinización estromal. Estos estrógenos tienen un conocido efecto proliferativo sobre los vasos sanguíneos, como demuestran los casos de mujeres jóvenes que toman anticonceptivos orales y desarrollan hemangiomas hepáticos. Además se han detectado receptores para estrógenos en las células del endotelio vascular humano y en los propios hemangiomas<sup>2,3,6</sup>.

Ningún grupo de edad está considerado particularmente susceptible y de este modo están descritos hemangiomas del ovario en lactantes, niñas y ancianas. Apenas se recogen de 8-10 casos en edad infantil y solo existe un caso diagnosticado durante el tercer trimestre de la gestación. Son lesiones unilaterales, de morfología redondeada u oval, de superficie externa lisa y brillante, de color rojo-violáceo y con tamaños que oscilan hasta los 24 cm<sup>1,7</sup>.

Clásicamente se han distinguido dos tipos de hemangioma en función del tamaño y características de los vasos sanguíneos implicados. El hemangioma capilar está constituido por vasos de un calibre semejante a los capilares y es más típico de otras localizaciones corporales y el hemangioma cavernoso que asienta en vasos de mayor grosor y es el tipo más frecuente en el aparato genital. También se describen formas tumorales mixtas<sup>8</sup>. Más novedosa es la clasificación de Kaneta, que describe junto con los hemangiomas capilar y cavernoso, el hemangioma venoso, el hemangioma tipo tejido granular, el hemangioma racemoso, el hemangioma epiteliode y el hemangioma copetudo<sup>9</sup>.

Dependiendo del tamaño, se suele presentar como hallazgo único ocasional o ser descubierto al diagnosticar la sintomatología clínica o analítica que a veces lo acompaña, y formar parte de una asociación sindrómica.

El diagnóstico clínico de sospecha se configura por el aumento del perímetro abdominal a expensas del propio crecimiento tumoral, por la ascitis acompañante o por crisis iterativas de abdominalgia debido a fenómenos de isquemia por torsión.

En ocasiones se solapan la asociación de un hemangioma de ovario con cierto grado de ascitis y derrame pleural, esto ocasiona que el caso también se pueda exponer como un pseudo síndrome de Meigs<sup>3,8</sup>. La fisiopatología de esta ascitis no está aclarada en su totalidad. Puede ser secundaria al patrón vascular anormal intrínseco del tumor, o a alteraciones vasculares locoregionales secundarias a la tumoración. También pudiera ocasionarse por la disrupción de los linfáticos, la irritación de la superficie mesotelial del peritoneo

o por la pérdida de líquido a través de la superficie del tumor<sup>9,10</sup>.

Se han asociado casos con una hemangiomatosis difusa local a nivel abdomino-pélvico o con un proceso de hemangiomatosis generalizada en los que se ven afectados pleura, pericardio, mediastino o pulmón. También se han definido conjuntamente con hemangiomas gigantes, hipertróficos y completamente desarrollados que provocan una trombopenia de consumo y conforman el síndrome de Kasabach-Merritt<sup>1,8</sup>.

Análíticamente el hemangioma de ovario se puede combinar con una trombopenia aislada, un aumento en los niveles de estrógenos, andrógenos y progestágenos y un mayor o menor aumento del marcador tumoral CA 125, como sucede en nuestro caso<sup>10</sup>. Desde un punto de vista oncológico están documentados casos de asociación con hiperplasias endometriales atípicas y existe un caso sincrónico con un adenocarcinoma de endometrio bien diferenciado<sup>5,11</sup>.

En los hemangiomas del ovario, a pesar de ser una neoplasia no funcional o inerte endocrinológicamente, está sólidamente demostrado la luteinización de las células del estroma ovárico circundante a la tumoración. A veces concurre en el tejido sano del ovario contralateral.

La patogénesis de la luteinización estromal permanece controvertida y varias hipótesis apoyan que es una reacción celular consecuencia de la expansión tumoral progresiva en el interior del parénquima del ovario. Otros autores sugieren la existencia de focos celulares neoplásicos no detectables y productivos de gonadotropina coriónica humana -HCG- y otros postulan que existirán sustancias no determinadas y secretadas por las células tumorales que inducen este proceso de luteinización<sup>6,12</sup>.

Esta luteinización estromal es rara en tumores no epiteliales y se describe en menos de una decena de hemangiomas de ovario. La luteinización de las células estromales suele acompañar más frecuentemente a tumores epiteliales de estirpe mucinosa, a tumores germinales y metastásicos<sup>5</sup>.

Las células de este estroma producen hormonas esteroideas, fundamentalmente andrógenos y estrógenos. En su inicio se sintetizan andrógenos, del tipo de la androstendiona, que son capaces de ocasionar un perfil clínico de virilización. Posteriormente estos andrógenos son transformados en estrógenos, mayoritariamente estrona, por la aromatasa del tejido adiposo. Estos estrógenos tie-

nen la capacidad de inducir una patología clínica debido a un estado de hiperestronismo<sup>5,11</sup>. Así, el aumento de la tensión mamaria, los episodios de sangrado uterino irregular y las metrorragias postmenopáusicas son los síntomas que traducen un ambiente estrogénico elevado. En libre progresión originan con el tiempo una hiperplasia endometrial e incluso en un adenocarcinoma de endometrio<sup>2</sup>.

El diagnóstico diferencial de los hemangiomas debe establecer con el angiosarcoma, entidad maligna del hemangioma y del que sólo se han documentado 9 casos, en esta tumoración existe atipia citológica, necrosis y aumento notable de la actividad mitótica. Con el tumor ovárico de células lipídicas, en el cual aparecen de forma típica una hipertecosis, células esteroideas y células de Leydig. También se establecerá una diferenciación con el luteoma estromal, el linfangioma y con el teratoma ovárico con masiva proliferación hemangiomatosa<sup>6,8,10</sup>.

El diagnóstico por ecografía transvaginal solo nos confirma la existencia de una tumoración ovárica compleja. Ofrece una ecogenicidad mixta por la habitual presencia de zonas sólidas y quísticas en la conformación tumoral del hemangioma, sin ofrecer datos o signos muy específicos<sup>13,14</sup>.

La ecografía doppler color y la resonancia nuclear magnética -RNM- con contraste intravenoso constituyen las dos técnicas radiológicas diagnósticas más sensibles, específicas y con mejores dividendos a la hora de evaluar estructuras tumorales ricamente vascularizadas. Con estos procedimientos diagnósticos y a pesar de efectuar una evaluación más concienzuda y detallada y aún siendo capaces de demostrar un flujo sanguíneo tumoral prominente que permita orientar histológicamente la neoplasia, pocas veces definen con total seguridad la naturaleza de la lesión. Numerosos autores han comunicado que existe una gran semejanza morfológica cuando tras un estudio clásico de RNM en T1 y T2 potenciados, se examinan las imágenes obtenidas de un hemangioma hepático y se comparan con un posible hemangioma ovárico<sup>12,13</sup>.

En conclusión podemos decir que en la mayoría de las ocasiones, ginecólogos y pacientes tenemos un diagnóstico clínico y ecográfico de una lesión orgánica de ovario y con cierta sospecha de malignidad. Bajo estas condiciones y con mayor o menor prontitud dependiendo del estado clínico y las determinaciones analíticas resultantes, habitualmente se indica a la mujer la realización de una laparotomía exploradora.

En estas circunstancias la ausencia de un diagnóstico anatomopatológico certero obliga durante la cirugía a la realización de una biopsia intraoperatoria, que en la mayoría de las ocasiones será capaz de excluir la malignidad histológica de la tumoración y permitirá afrontar un tratamiento quirúrgico conservador en casi todos los casos.

## Bibliografía

1. Mirilas P, Georgiu G, Zevgolis G. Ovarian cavernous hemangioma in an 8-year-old girl. *Eur J Pediatr Surg* 1999;9:116-8.
2. Miliaras D, Papaemmanouil S, Blatzas G. Ovarian capillary hemangioma and stromal luteinization: a case with hormonal receptor evaluation. *Eur J Gynaecol Oncol* 2001;22:369-71.
3. Cancelo MJ, Monte JC, Martín S, De la Viuda E, Alvarez JI. Hemangioma de Ovario. *Prog Obstet Ginecol* 2000; 43:419-22.
4. M`pempa Loufoua-Lemay AB, Peko JF, Mbongo JA, Mokoko JC. Ovarian torsion revealing an ovarian cavernous hemangioma in a child. *Arch Pediatr* 2003; 10:986-8.
5. Gucer F, Ozyilmaz F, Balkanli-Kaplan P, Mulayim N, Aydin O. Ovarian Hemangioma presenting with hyperandrogenism and endometrial cancer: a case report. *Gynecol Oncol* 2004;94:821-4.
6. Itoh H, Wada T, Michikata K, Sato Y, Seguchi T, Akiyama Y, Kataoka H. Ovarian teratoma showing a predominant hemangiomatous element with stromal luteinization: report of a case and review of the literature. *Pathol Int* 2004;54:279-83.
7. Correa-Rivas MS, Colón-González G, Lugo-Vicente H. Cavernous hemangioma presenting as a right adnexal mass in a child. *P R Health Sci J* 2003;22:311-3.
8. Uppal S, Heller DS, Majmudar B. Ovarian hemangioma -report of three cases and review of the literature. *Arch Gynecol Obstet* 2004;270:1-5.
9. Kaneta Y, Nishino R, Asaoka K, Toyoshima K, Ito K, Kitai H. Ovarian hemangioma presenting as pseudo-Meigs' syndrome with elevated CA 125. *J Obstet Gynaecol Res* 2003;29:132-5.
10. Gehrig PA, Fowler WC Jr, Lininger RA. Ovarian capillary hemangioma presenting as an adnexal with mass ascites and elevated Ca-125. *Gynecol Oncol* 2000; 76:130-2.
11. Savargaonkar PR, Wells S, Graham I, Buckley CH. Ovarian haemangiomas and stromal luteinization. *Histopathology* 1994;25:185-8.

12. Yamawaki T, Hirai Y, Takeshima N, Hasumi K. Ovarian hemangioma associated with cocomitant stromal luteinization ascities. *Gynecol Oncol* 1996;61:438-41.
13. Cormio G, Loverro G, Iacobellis M, Mei L, Selvaggi L. Hemangioma of the ovary. A case report. *J Reprod Med* 1998;43:210-3.
14. Paladini D, Di Meglio A, Esposito A, Di Meglio G, Riccio A, Di Pietto L, Formicola C. Ultrasonic features of an ovarian cystohemangioma: a case report. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1991;40:239-40.