

# Leiomioma oral: A propósito de un caso clínico

**María Lloria Benet (1), Jose Vte. Bagán (2), Enrique Lloria de Miguel (3), Alfonso Borja Morant (3), Sonia Alonso (4)**

(1) Licenciada en Odontología. Máster en Medicina Oral

(2) Catedrático de Medicina Oral de la Universidad de Valencia. Jefe del Servicio de Estomatología del Hospital General Universitario de Valencia

(3) Cirujano Oral y Maxilofacial

(4) Médico Residente del Servicio de Anatomía Patológica del Hospital General Universitario de Valencia. España

*Correspondencia:*

*Dra. María Lloria*

*Hospital General Universitario*

*Servicio de Estomatología*

*C/ Tres Cruces sn*

*46014 - Valencia - España*

*Tel: 96 3862900*

*E-mail: bagan@uv.es*

Recibido: 15-11-2001 Aceptado: 28-3-2002

Lloria-Benet M, Bagán JV, Lloria de Miguel E, Borja-Morant A, Alonso S. Leiomioma oral: A propósito de un caso clínico. Med Oral 2003;8:215-9.

© Medicina Oral S. L. C.I.F. B 96689336 - ISSN 1137 - 2834

## RESUMEN

El leiomioma oral es un tumor benigno del músculo liso que aparece frecuentemente en el útero, aparato gastrointestinal y piel, siendo poco frecuente en la cavidad oral debido a la escasez de músculo liso en esta localización. Este tipo de tumores puede aparecer a cualquier edad, presentándose generalmente como una masa de crecimiento lento asintomática, aunque en ocasiones pueden ser dolorosos. Los lugares más frecuentes de asentamiento dentro de la cavidad oral son: labios, paladar y lengua.

El diagnóstico de leiomioma se basa fundamentalmente en la histología, y se emplean tinciones específicas para diferenciarlos de otros tumores.

El tratamiento es la extirpación quirúrgica de la lesión.

Presentamos un caso de una mujer de 62 años de edad con un leiomioma en mejilla derecha de 6 meses de evolución, exponiendo las características clínicas de la lesión y tratamiento de la misma.

**Palabras clave:** *Leiomioma, cavidad oral.*

## INTRODUCCION

El leiomioma es un tumor benigno del músculo liso que puede aparecer en cualquier localización, siendo más frecuente en el aparato genitourinario femenino. La aparición en la cavidad oral es poco frecuente 0.065% (1) y esto es debido a la escasez de músculo liso en esta localización. Stout (2) sugirió que el origen de músculo liso en la cavidad oral es la túnica media

arterial, mientras que Glas (3) considera que proviene del conducto lingual y propone la papila circunvalada como otro posible origen.

El leiomioma oral puede aparecer a cualquier edad, aunque la incidencia máxima se sitúa entre 40-59 años (4).

Dentro de la cavidad oral la localización más frecuente son: labios, lengua, paladar duro y blando seguido de mejillas (5).

El tratamiento de elección para este tipo de tumores es la cirugía y ha sido el único tratamiento empleado hasta el momento, habiéndose dado sólo un caso de recidiva en un paciente dos semanas después de la cirugía lo que hace suponer que no se extirpó toda la lesión (6).

En la actualidad sólo hay 139 casos de leiomiomas orales descritos, el propósito del presente estudio es presentar un nuevo caso de un leiomioma de localización en mejilla, así como exponer las características clínicas e histológicas del mismo.

## CASO CLINICO

Presentamos el caso de una paciente mujer de 62 años de edad, con antecedentes médicos de hernia de hiato, diverticulosis y diverticulitis, colon irritable, inflamación de vesícula y artrosis, que se estaba medicando con Duspatalin ®. Entre los antecedentes quirúrgicos había sido intervenida de una amigdalectomía en la infancia.

La paciente acude a nuestra consulta por presentar una tumoración asintomática en mejilla derecha de 6 meses de evolución, que no había remitido con tratamiento antibiótico ni

antiinflamatorios.

A la exploración clínica nos encontramos con una tumoración en mucosa yugal derecha, por delante de la rama ascendente mandibular con un tamaño de 2 x 3 cm de diámetro, de consistencia dura a la palpación con un aspecto de mucosa sana en superficie. Solicitamos una ortopantomografía donde no se encontró ningún hallazgo patológico, una tomografía axial computerizada (TAC) y una biopsia de la lesión.

En un corte axial del TAC, a nivel de la rama ascendente mandibular nos encontramos con una tumoración de un tamaño de 3 x 2 cm de diámetro de consistencia similar al músculo situada en el lugar correspondiente a la «Bola Adiposa de Bichat» (Figura 1).

La lesión se extirpó quirúrgicamente bajo anestesia general, en el informe anatomopatológico nos informan de un tumoración sólida, bien delimitada, constituida por células fusiformes, de núcleos elongados y citoplasma eosinófilo apuntado, que se disponen en fascículos, con presencia de numerosos vasos de paredes finas y áreas de esclerosis con pequeños focos de calcificación distrófica. Alrededor de la tumoración se observan pequeños fascículos de músculo esquelético, sin que se identifiquen glándulas salivales ni mucosa oral (Figura 2). El estudio inmunohistoquímico reveló la expresión en estas células de actina siendo negativas para citoqueratina y S-100, con diagnóstico de leiomioma oral (Figura 3).

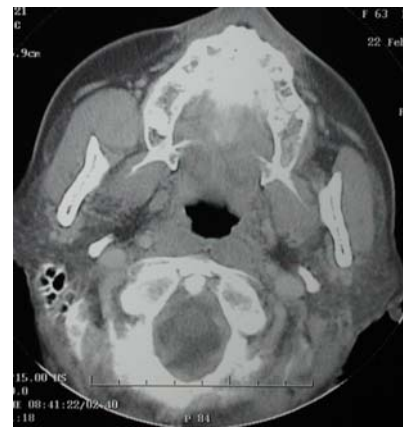
En la actualidad, después de 2 meses de la extirpación de la lesión la paciente se encuentra bien y no se observa ningún signo de recidiva.

## DISCUSION

Los tumores de músculo liso son poco frecuentes en la cavidad oral, debido a la poca cantidad de músculo no estriado en esta localización. El origen del músculo liso en la cavidad oral es probablemente la túnica media arterial, teoría propuesta por Stout (2), o restos de tejido embrionario como el conducto lingual o la papila circunvalada propuesto por Glas (3).

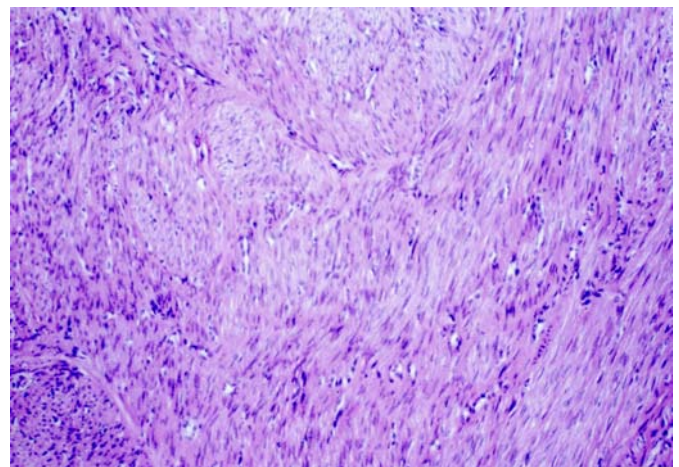
En una serie de tumores de músculo liso de todo el cuerpo revisada por Farman en 1975 (1) se vio que un 95% ocurrían en el tracto urogenital femenino, de todos los tumores restantes sólo el 0.064% tenían una localización intraoral. En 1884 Blanc (7) publicó el primer caso de un leiomioma oral en un paciente de 33 años con una tumoración en la base lingual. Glas (3), describió el segundo caso de un leiomioma lingual en un paciente varón de 44 años de edad, desde entonces hay descritos en la literatura 139 leiomiomas orales, siendo las localizaciones más frecuentes: labios, lengua, paladar duro y blando y mejillas en menor frecuencia. Nosotros añadimos un nuevo caso de un leiomioma en mejilla derecha a la literatura.

De los leiomiomas descritos en la literatura se han encontrado que 70 fueron varones y 58 mujeres, el paciente más joven fue un niño de 6 días de edad con un leiomioma en la base de lingual que le dificultaba la respiración por lo que tuvo que ser intubado al nacer (8), y el caso de más edad fue un varón de 88 años de edad (9). No obstante, el pico de edad de estos tumores benignos de músculo liso se sitúa entre los 40-49 años de edad, y son más frecuentes en el sexo masculino con una proporción 2:1.



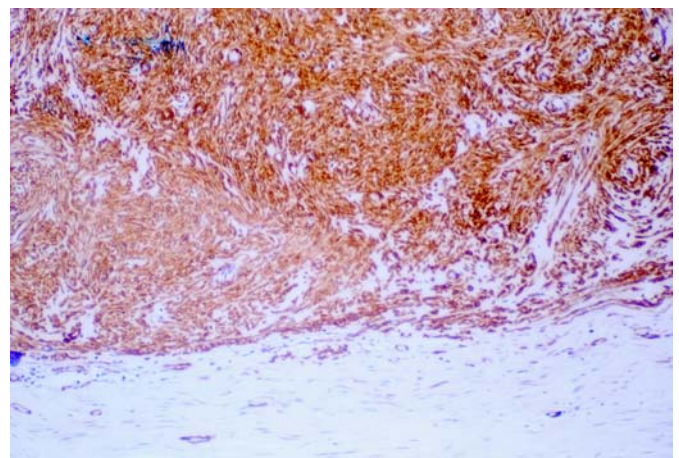
**Fig. 1.** Corte axial del TAC, con una tumoración de 2 x 3 cms, de consistencia similar al músculo localizada en la «Bola adiposa de Bichat».

*Axial view of the CA T, with a swelling of 2 x 3 cms, with a consistency similar to the muscle placed in the «Buccal Fat Pad».*



**Fig. 2.** El tumor muestra bandas entrelazadas de células de músculo liso pequeñas y uniformes, separadas por un estroma fibrovascular. (Hematosilina-eosina, x100).

*The tumour shows intersecting bands of small, uniform smooth muscle cells separated by a fibrovascular stroma. (Hematoxylin-eosin, x100).*



**Fig. 3.** La inmunohistoquímica revela la positividad frente a la actina del músculo liso dentro de las células tumorales. (x100).

*Immunohistochemical staining reveal the expression of smooth muscle actin within the tumour cells. (x100).*

Hemos descrito el caso de una paciente mujer de 62 años de edad, dato que se ajusta a lo anteriormente mencionado.

En la mayoría de los casos el leiomioma se presenta como una masa asintomática, de crecimiento lento, firme a la palpación, mientras que el color de las lesiones depende de la vascularidad y profundidad de las mismas. Lucas (10) publicó un caso de un leiomioma en encía con una coloración violácea en superficie, mientras que en nuestro caso tenía un aspecto de mucosa normal.

Aunque en el 43% de los casos las lesiones son asintomáticas, hay autores (11,12) que han publicado lesiones sintomáticas, siendo los síntomas más frecuentes: dificultad en la masticación y deglución y movilidad dentaría.

Suelen presentarse como lesiones de pequeño tamaño, entre 1-2 cm, de menos de un año de evolución (4), nuestro caso aunque de tamaño algo mayor 2 x 3 cm, con un tiempo de evolución de 6 meses se ajusta a lo encontrado en la literatura.

La World Health Organization (WHO) (13), distingue 3 subtipos histológicos de leiomiomas: leioma (sólido), angiomioma (leiomioma vascular), leiomioma epitelial (leiomioblastoma), siendo más frecuente el angiomioma con una 74%, seguido del leiomioma sólido con un 25%, y sólo se ha descrito un caso de un leiomioblastoma (14,6) en la literatura. Duhing y Ayer (15) sugirieron que el leiomioma vascular representa sólo un estadio de un continuo proceso de maduración del músculo liso. El proceso de maduración sería el siguiente: hemangioma, angioma, leiomioma vascular, leiomioma y leiomioma sólido. Otros autores como Farman (1) no están de acuerdo con ésta teoría. Nuestro caso corresponde a un leiomioma sólido.

Por la apariencia clínica es muy difícil diferenciar un leiomioma de otros tumores mesenquimales como: fibroma, neurofibroma, lipoma, mucocele, o del tumor maligno de músculo liso, el leiomiosarcoma (14), por lo que el diagnóstico final de un leiomioma está basado en el análisis histológico de la lesión. Para diferenciar un leiomioma de otras tumoraciones de células fusiformes es necesario el empleo de tinciones específicas que identifiquen las fibras musculares y de colágeno, entre estas tinciones encontramos: Van Gieson, Tricromico de Masson y Mallory PTAH. En el tricromico de Masson las fibras musculares se tiñen de rojo, mientras que el colágeno se tiñe de azul o verde, aunque, Oles (16) recomienda la tinción de Van Gieson para teñir el músculo. Tanto el tricromico de Masson como la tinción de Van Gieson pueden dar falsos positivos para el músculo y para las fibras de colágeno, para solucionar este problema se recomienda verificar la existencia de miofibrillas con la tinción de Mallory PTAH. En nuestro caso se hicieron tinciones con hematoxilina-eosina y tricromico de Masson. También es importante el empleo de técnicas inmunohistoquímicas (17) para hacer el diagnóstico diferencial con otras patologías, en el leiomioma encontraremos una positividad frente a la actina, marcador de músculo liso, que dio positiva en nuestro caso, dando negativa frente a la citoqueratina y S-100.

Es muy difícil diferenciar un leiomioma bien diferenciado de un leiomiosarcoma de bajo grado de malignidad, para resolver este problema, Robbins y Corten (18) sugieren que el factor más importante es la presencia de figuras mitóticas, así pues si

encontramos más de 10 figuras mitóticas por campo de gran aumento (40 x), nos indica un comportamiento maligno de la lesión, mientras que menos de 2 figuras mitóticas por 10 campos de gran aumento indica un buen pronóstico de la lesión según Gorlin y Golman (19), y esto fue lo que encontramos en nuestro caso. El porcentaje de malignización del leiomioma en la cavidad oral es alto comparado con la misma lesión en el tracto genital femenino, ya que este se sitúa en un 20% (1).

El tratamiento de elección para este tipo de lesiones es bien la biopsia-extirpación o la resección en bloque de la lesión dejando unos márgenes de seguridad libres de tumor (5).

La cirugía ha sido el tratamiento único empleado hasta el momento en todos los casos de leiomioma descritos en la literatura, habiéndose dado sólo un caso de recidiva en un paciente dos semanas después de la cirugía lo que hace suponer que no se extirpó toda la lesión (6). La extirpación de la lesión en bloque bajo anestesia general fue el tratamiento empleado en nuestro caso debido a que el tamaño de la lesión y la localización de la misma impidieron realizar una buena biopsia-extirpación de la tumoración.

---

## ENGLISH

---

### Oral leiomyoma: A case report

LLORIA-BENET M, BAGÁN JV, LLORIA DE MIGUEL E, BORJA-MORANT A, ALONSO S. ORAL LEIOMYOMA: A CASE REPORT. MED ORAL 2003;8:215-9.

#### SUMMARY

Oral leiomyoma is a benign smooth muscle tumour, that occurs most frequently in the uterine myometrium, gastrointestinal tract, and skin. Occurrence in the oral cavity is considered rare, probably because of the paucity of smooth muscle tissue at this level.

Smooth muscle tumours can occur at any age and usually appear as a slow growing, firm mucosal nodule. Most lesions are asymptomatic, although occasional tumours can be painful. The most common sites are: lips, palate and tongue.

The diagnosis of leiomyoma in the oral cavity is mainly determined by histological studies and special specific stains may be helpful to differentiate from other tumours, and also to confirm the smooth muscle origin if the diagnosis is in doubt. Surgical excision of the lesion appears to be the best treatment option.

The purpose of this article is to present a case of a 62 year-old woman, with a 6 month history of a leiomyoma in her right cheek and to explain its clinical features and treatment.

**Key words** : *Leiomyoma, oral cavity.*

## INTRODUCTION

Leiomyoma is a smooth muscle benign tumour that can appear at any location, being the most frequent site the female genital tract. Only 0.065% (1) of smooth muscle tumours had an intraoral location, this is due to the lack of smooth muscle at this site. Stout (2), suggested that the origin of the smooth muscle in the oral cavity is the tunica media of the blood vessels wall, whereas Glass (3) considered the smooth muscle of the ductus lingualis and suggested the circumvallate papillae as another possible source.

Oral leiomyomas can appear at any age, but, the greatest prevalence is in the 40-59 years age groups, being the most frequent locations the lips, tongue, hard and soft palate, and much less frequently in the cheeks (4,5).

Surgical excision of leiomyoma appears to be the best option for treatment, and it has been the only one used until nowadays. There has been just one recurrence case 2 weeks after the excision of the lesion, so it was suggested that the tumour was not removed totally (6).

Nowadays there are only 139 leiomyomas reported in the literature. The purpose of this article is to present a new case of a leiomyoma in the cheek and explain its clinical and histological features.

## CASE REPORT

We present a case of a 62 year-old woman with a previous medical history of hiatus hernia, diverticulosis and diverticulitis, irritable colon, inflamed gallbladder and arthrosis, she was prescribed and was taking Duspatalin®. Previous surgical history, indicated that she underwent a tonsillectomy during her childhood.

The patient came to our clinic with a 6 month history of swelling in the right cheek, that did not resolved neither with antibiotics nor anti-inflammatory treatment.

Clinically we found a swelling mass 2 x 3 cms in diameter, in front of the ascending mandibular branch. The tumour was solid at touch and did not present any unusual coloration.

We request for an orthopantomography where we did not find anything pathological, and also a computed axial tomography (CAT).

In an axial view of the CAT, we found in the ascending mandibular branch a swelling of a 2 x 3 cms of diameter with a consistency similar to the muscle placed in the "Buccal Fat Pad" (Figure 1).

The lesion was removed under general anaesthesia.

The histological report informed that the tumour was solid, well circumscribed, and was constituted of small spindle cells, arranged in bands, with the presence of numerous thin walled vessels between them, and areas of sclerosis with small focus areas of dystrophic calcification. The cells were small and fusiform, and the nucleus was uniform, monochromatic and spindles, with blunt ends. No mitotic figures were found. Surrounding the tumour small bands of skeletal muscle were observed, without any identification of neither salivary glands nor oral mucosa (Figure 2). The immunohistochemical study revealed the expression of vimentin, desmin, muscle specific

actin (MSA) and smooth muscle actin (SMA) within the tumour cells (Figure 3). The other markers studied (cytokeratine, AE1/AE3, EMA, S100 and CD34) were negative. With all these findings a diagnosis of oral leiomyoma was made.

Nowadays, 2 month after the excision of the lesion, no signs of any recurrence are observed.

## DISCUSSION

Smooth muscle tumours are rare in the oral cavity, this is probable because of the paucity of smooth muscle tissue.

The source of smooth muscle in the oral cavity is either the arterial tunica media as suggested Scout (2), or the ductus lingualis and the circumvallate papillae as proposed Glass (3). In an extensive study of smooth muscle tumours reviewed by Farman in 1975 (1), showed that 95% of them where in the female genital tract, of the remaining, only 0.064% had an intraoral location. In 1884, Blanc (7), reported the first case of a leiomyoma in the oral cavity in a 33 year-old man with a large tumour at the base of the tongue. The second case was described by Glass (3), involving the tongue of a 44 year-old man. Since then, there are nowadays 139 leiomyomas described in the literature. The most frequent locations are: lips, tongue, hard and soft palate, and fewer in the cheek. We add a new case to the literature of a leiomyoma located in the right cheek.

Between all the oral leiomyomas described in the literature, 70 cases are men and 58 cases are women, the youngest patient was a 6 year-old infant who had a leiomyoma at the base of the tongue and required intubation at birth for airway obstruction (8). The oldest patient was a 88 year-old man (9). Never less the peak age of prevalence was 40-59 years old for smooth muscle benign tumours, and seems to be more frequent in men with a 2:1 ratio. We described a case of a 62 year-old woman, which corroborates with the current literature.

The majority of the cases reported indicated an asymptomatic slow growing mass, firm at touch and the colour of the lesions depends on their depth and on their vascularity. Lucas (10) published a case of a gingival leiomyoma, which appeared as purple swelling, while our case had the coloration of a normal mucosa.

Although 43% of the lesions are asymptomatic, some authors (11,12) had reported symptomatic lesions, being the most frequent ones: difficulty in chewing or swallowing and loose teeth.

These are not very big tumours, with an average size between 1-2 cms, and with a history of less than a year of evolution (4). Our case, was slightly bigger in size, 2 x 3 cms and had a 6 month history, this corroborates with what has been published in literature.

The World Health Organization (WHO) (13) distinguished three types of leiomyomas: leiomyoma (solid), angiomyoma (vascular leiomyoma), and epitheloid leiomyoma (leioblastoma). The most frequent type is the angiomyoma with a 74%, followed by solid leiomyomas with a 25% and there is only one case of an epitheloid leiomyoma described in the literature (14,6).

Duhing and Ayer (15) proposed that the vascular leiomyoma is only one type of a continuous maturation process of proliferative

tissue of the smooth muscle. The maturation process would be: hemangioma, angioma, vascular leiomyoma, leiomyoma and solid leiomyoma. Other authors like Farman (1) disagree with this theory. Our case was a solid leiomyoma.

From the clinical appearance is very difficult to differentiate a leiomyoma from other mesenchymal tumours such as, fibroma, neurofibroma, lipoma, mucocele or the leiomyosarcoma, the malignant counterpart (14,16), therefore the final diagnosis of oral leiomyoma is mainly determined by a histological study. A diagnosis of a typical leiomyoma can normally just be made with the microscopic findings observed with hematoxylin and eosin stains. Special stains, such as Masson's trichrome stain can be useful to demonstrate collagen fibres between smooth muscle cells and myofilaments within them (17). In our case hematoxylin-eosin and Masson's trichrome stains were performed. It is also important the use of immunohistochemical studies to make the differential diagnosis with other spindle cells tumours. We found positivity for smooth muscle markers; desmin, MSA and SMA. Other markers such as; S-100 protein, CD34, CK and EMA were used for differential diagnosis with other spindle cell tumours, but all of them were negative. Sometimes, it is very difficult to differentiate a leiomyoma from a low grade leiomyosarcoma. To solve this problem Robbins and Corten (18), suggested that ten mitotic figures per field denote probable malignant behaviour, whereas fewer than two mitotic figures per 10 high power fields, generally indicates a good prognosis according to Gorlin and Golman (19). This was what we found in our case report. The proportion of malignancies among oral smooth muscle tumours is high when compared with the same lesions in the female genital tract, it is reported (1) that 20% of smooth muscle tumours were malignant.

The first option for treatment in benign smooth muscle tumours appears to be an excisional-by-opsie or the bloc resection of the lesion with wide margins (5). Surgery has been used as the only option for treatment in all leiomyomas described in literature, and it has been reported only one recurrence case of a leiomyoma 2 weeks after the excision, therefore an incomplected resection must be suspected as the probable cause (6). In our case we did a bloc resection of the lesion under general anaesthesia because the size and location of the tumour unable us to do an enucleation.

## BIBLIOGRAFIA/REFERENCES

1. Farman AG. Benign smooth muscle tumors. *S Alf Med J* 1975;49:1333. En: Farman AG, Kay S 1977;43:402.
2. Stout AP. Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. *Am J Cancer* 1937;29:435.
3. Glas E. Beitrage zur pathologie der zungengrudtumoren. *Wein Klin Wochenshr* 1905;18:747.
4. Epivatianos A, Trigonidis G, Papanayotou P. Vascular leiomyoma of the oral cavity. *J Oral Maxillofac Surg* 1985;43:377-82.
5. Wertheimer-Hatch L, Hatch GF, Hatch KF, Davis GB, Blanchard DK, Foster RS et al. Tumors of the oral cavity and pharynx. *Worl J Surg* 2000;24:395-400.
6. Svane TJ, Smith BR, Consentino BJ, Cundiff EJ, Ceravolo JJ. Palatal angioleiomyoma. *J Periodontol* 1986;57:433.
7. Blanc E. Travaux originaux. *Gaz Hebd Med Chir* 1884;21:611.
8. Kotler HS, Gould NS, Gruber B. Leiomyoma of the tongue presenting as a congenital airway obstruction. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1994;29:139.

9. Robinson EC, Whyte AM. Leiomyosarcoma of the cheek: a case report. *Br J Oral Surg* 1979;16:100.
10. Lucas R. Pathology of tumours of the oral tissues. 1<sup>st</sup> ed. London, Churchill Livingstone; 1964. p. 170.
11. Cherrick H, Dunlap C, King O. Leiomyomas of the oral cavity. Review of the literature and clinicopathologic study of seven new cases. *Oral Surg* 1973;35:54.
12. Kelly D, Harrigan W. Leiomyoma of the tongue : report of a case. *J Oral Surg* 1977;35:316.
13. Ezinger F, Lattes R, Torloni H. histological typing of Soft Tissue and Tumors. Geneva, Worl Health Oraganizaton 1969. p. 30-1.
14. Leung K, Wong DY, Li W. Oarl leiomyoma: report of a case. *Maxillofac Surg* 1990;48:735-8.
15. Duhing J, Ayer J. Vascular leiomyoma. A study of sixty-one cases. *Arch Pathol* 1959;68:424.
16. Oles RD. The relationship between oral fibromas and leiomyomas. *Oral Surg* 1968;25:840.
17. Grippaudo G, Becelli R. Leiomioma del muscolo massetere: descrizione di un caso clinico. *Minerva Stomatol* 1996;45:277-80.
18. Robbins SL, Corten RI. Pathologic Basis of Diseases (ed 2). Philadelphia, PA, Saunders;1979. p. 209-10.
19. Gorlin RJ, Godlman HM. Oral Pathology. St Louis, MO Mosby; 1970. p. 889.