



Caso clínico

Miositis proliferativa de la lengua: una lesión rara de localización excepcional. Caso clínico

Noemí Vieira Sebe*, Cristina Cárdenas Serres, Fernando Almeida Parra y Julio Jesús Acero Sanz.

Hospital Universitario Ramón y Cajal. Madrid, España. Hospital Universitario Puerta de Hierro. Majadahonda, Madrid, España

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 23 de abril de 2024

Aceptado: 13 de junio de 2024

Palabras clave:

Miositis proliferativa, lengua, lesión pseudosarcomatosa.

Keywords:

Myositis proliferative, tongue, pseudosarcomatous lesion.

RESUMEN

La miositis proliferativa es una lesión pseudosarcomatosa benigna que afecta al músculo esquelético. Se presenta como una masa de rápido crecimiento que puede confundirse con un proceso maligno. El diagnóstico definitivo de esta entidad lo aportará el estudio anatomopatológico de la lesión, que permite realizar el diagnóstico diferencial con lesiones malignas. Su localización en la musculatura de la cavidad oral es excepcional. El objetivo de este trabajo es presentar el caso de un paciente diagnosticado de miositis proliferativa de la musculatura de la lengua.

Proliferative myositis of the tongue: a rare lesion of exceptional localization. Case report

ABSTRACT

Proliferative myositis is a benign pseudosarcomatous lesion affecting skeletal muscle. It presents as a rapidly growing mass that can be mistaken for a malignant process. Definitive diagnosis of this condition is provided by histopathological examination of the lesion, allowing for differential diagnosis with malignant lesions. Its occurrence in the musculature of the oral cavity is exceptional. The aim of this study is to present the case of a patient diagnosed with proliferative myositis of the tongue.

*Autor para correspondencia:

Correo electrónico: vieiramaxilofacial@gmail.com (Noemí Vieira Sebe).

<http://dx.doi.org/10.20986/recom.2024.1528/2024>

1130-0558/© 2023 SECOM CyC. Publicado por Inspira Network. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

INTRODUCCIÓN

La miositis proliferativa (MP) es una lesión pseudosarcomatosa rara, de etiología desconocida, originada de la proliferación de miofibroblastos. A pesar de ser una lesión benigna, presenta un crecimiento intramuscular rápido que obliga a descartar un proceso maligno. Su localización en la musculatura de la cavidad oral es excepcional.

Presentamos el caso de un paciente diagnosticado en nuestro centro de miositis proliferativa de la musculatura de la lengua, los hallazgos radiológicos y las características histológicas de la lesión.

CASO CLÍNICO

Presentamos el caso de un varón de 83 años, no fumador y con antecedente de diabetes mellitus y cardiopatía isquémica, que acudió a nuestras consultas para valoración de una lesión a nivel de dorso lingual de crecimiento progresivo y de 6 meses de evolución. El paciente no refería antecedentes traumáticos.

A la exploración clínica, se apreciaba una lesión de 1 cm de tamaño, indurada a la palpación y no dolorosa, localizada en el tercio posterior del dorso lingual (Figura 1).

Se tomaron dos biopsias incisionales con anestesia local sin evidencia de malignidad al estudio histológico.

Se solicitó una RM con contraste, donde se describe una tumoración de márgenes irregulares localizada en la región dorsal del tercio posterior de la lengua de 2,8 x 1,8 x 3,4 cm, que presentaba extensa necrosis central y estaba ulcerada en su porción más superficial. La lesión era hipointensa en T1 respecto al tejido circundante y presentaba captación homogénea tras la administración de contraste. En T2 la lesión se mostraba hiperintensa respecto al tejido adyacente.



Figura 1. Lesión en tercio posterior de dorso lingual.

La tumoración se extendía a ambos lados de la lengua e infiltraba la región superior de ambos músculos genioglosos, sin existir infiltración de los músculos del suelo de la boca (Figura 2).

No se observaban datos de diseminación a distancia.

Ante los hallazgos radiológicos, se decidió realizar una tercera biopsia escisional en quirófano bajo anestesia general. En el estudio histológico reveló infiltración de las fibras musculares por una lesión hipocelular, mal delimitada, constituida por células tipo fibroblastos y abundante colagenización. La lesión se disponía en bandas y disecaba el tejido, condicionando atrofia de las fibras musculares. De manera ocasional se observaban células de tamaño grande, con citoplasma basófilo y nucleolo prominente, tipo ganglión. No se observó necrosis ni mitosis atípica.

Con técnicas inmunohistoquímicas la lesión era negativa para S100, CD34, actina ML, Beta-catenina, CKaE1aE3, factor XIIIa y calponina.

En base a los hallazgos en el estudio anatomopatológico e inmunohistoquímico, se concluyó que la lesión era compatible con miositis proliferativa.

Tras la intervención, el paciente no presentó datos de recidiva en la exploración física.

DISCUSIÓN

La miositis proliferativa (MP) es una lesión pseudosarcomatosa benigna poco frecuente descrita por primera vez por Kern en 1960¹. Se origina a partir de la proliferación de miofibroblastos y se caracteriza por presentar un crecimiento rápido y rasgos histopatológicos que pueden hacer sospechar de un proceso maligno². A día de hoy, su etiología se desconoce. En general, se considera a esta entidad como un proceso reactivo, con un antecedente traumático previo a la aparición de esta lesión en algunos casos. Otras posibles causas son la isquemia, vasculitis y anomalías cromosómicas³.

La localización más frecuente de la MP son los músculos del tronco, miembro superior y con menos frecuencia, la musculatura de cabeza y cuello^{2,3}. Su aparición en la musculatura de la cavidad oral es muy rara, con escasas publicaciones en la literatura científica de afectación en cavidad oral^{2,4,6}.

Suele aparecer en paciente de más de 45 años sin predilección por sexo, aunque se han descrito casos en pacientes pediátricos⁷. A nivel clínico se caracteriza como una masa intramuscular de rápido crecimiento, de semanas o meses de evolución, y que puede ser dolorosa³.

En el estudio mediante RM, las lesiones se aprecian, al igual que en el caso presentado, hipointensas en T1 con captación homogénea tras la administración de contraste; en la secuencia T2 las lesiones se muestran hiperintensas con marcada captación de contraste. Las fibras musculares adyacentes a la lesión se encuentran preservadas³. No existe un patrón radiológico diagnóstico de MP⁷.

El diagnóstico de confirmación de esta patología lo aporta el estudio histológico. A nivel microscópico se observa un patrón característico en "tablero de ajedrez" secundario a la alternancia de la proliferación de fibroblastos y células de músculo esquelético atroficas. Otra característica es la presencia de células gigantes basófilas de aspecto ganglionar, núcleo vesicular y

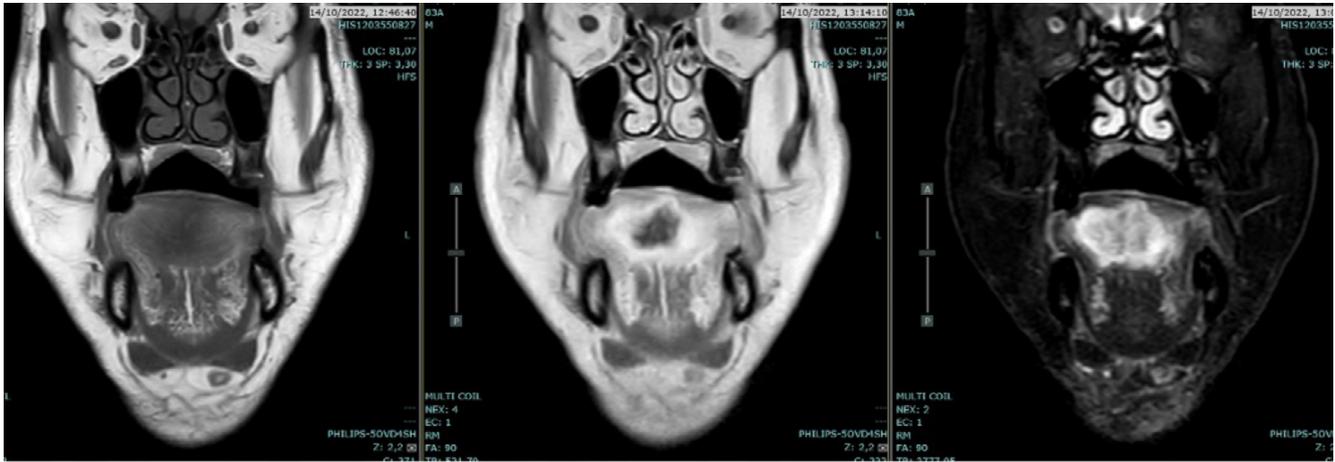


Figura 2. Primera imagen: secuencia T1. Segunda imagen: secuencia T1 con contraste. Tercera imagen: secuencia T2.

nucleolo prominente que, por su similitud con los rhabdomioblastos, pueden llevar a un diagnóstico erróneo de sarcoma. Por último, se observan figuras mitóticas variables, pero no atípicas^{2,3,7,8}.

Existen variaciones descritas en cuanto a la inmunohistoquímica de estas lesiones. En general se considera que los fibroblastos presentan un marcaje positivo para vimentina, actina músculo liso (AML) y actina músculo específico; mientras que las células gigantes presentan un marcaje positivas para vimentina⁷. Ambas células muestran marcaje negativo para citoqueratina, proteína S-100, desmina y factor XIIIa; en cuanto a las células gigantes, el marcaje a mioglobina y miogenina también será negativo^{2,7,8}. En el caso presentado, únicamente se obtuvo tinción negativa para proteína S-100 y factor XIIIa.

El diagnóstico diferencial de la MP incluye procesos benignos como la fascitis nodular, fascitis proliferativa, fibromatosis desmoide, miositis osificante y miopatías inflamatorias; y entidades malignas como el sarcoma y rhabdomiocarcinoma^{2,7,8}.

No existe un tratamiento específico para la MP, ya que dada su naturaleza benigna suele autolimitarse y resolverse con el tiempo. No se han descritos recurrencias o potencial metastásico. Se puede plantear un seguimiento clínico y radiológico tras el diagnóstico de esta patología, a pesar de que en casos determinados se puede indicar la extirpación de la lesión por razones estéticas o en caso de duda sobre el diagnóstico definitivo^{2,9}.

En nuestro caso, se recurrió a la biopsia escisional para descartar la existencia de un proceso maligno.

En conclusión, la miositis proliferativa es un proceso benigno que presenta de forma característica un crecimiento rápido que puede hacer sospechar de que se trate de una lesión maligna. Dado el buen pronóstico de la lesión, con resolución espontánea en el tiempo, es importante realizar un diagnóstico adecuado mediante estudio anatomopatológico para evitar intervenciones terapéuticas agresivas innecesarias.

ASPECTOS ÉTICOS

Los autores confirman que se han cumplido las normas éticas establecidas y que cuentan con el consentimiento informado del paciente para la publicación de imágenes.

CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

FINANCIACIÓN

El presente trabajo no ha recibido ningún tipo de financiación.

BIBLIOGRAFÍA

1. Kern WH. Proliferative myositis; a pseudosarcomatous reaction to injury: a report of seven cases. *Arch Pathol.* 1960;69:209-16.
2. Brooks JK, Schepher MA, Kramer RE, Papadimitriou JC, Sauk JJ, Nikitakis NG. Intraoral proliferative myositis: case report and literature review. *Head Neck.* 2007;29(4):416-20. DOI: 10.1002/hed.20530.
3. Bensalah A, Elbouardi N, Douida A, Haloua M, Alami B, Boubbou M, et al. Proliferative myositis: case report and review of the literature. *Radiol Case Rep.* 2021;16(7):1902-6. DOI: 10.1016/j.radcr.2021.04.042.
4. Dent CD, DeBoom GW, Hamlin ML. Proliferative myositis of the head and neck. Report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1994;78(3):354-8. DOI: 10.1016/0030-4220(94)90068-x.
5. Singh A, Philpott JM, Patel NN, Mochloulis G. Proliferative myositis arising in the tongue. *J Laryngol Otol.* 2000;114(12):978-9. DOI: 10.1258/0022215001904536.
6. Fujiwara K, Watanabe T, Katsuki T, Ohyama S, Goto M. Proliferative myositis of the buccinator muscle: a case with immunohistochemical and electron microscopic analysis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1987;63(5):597-601. DOI: 10.1016/0030-4220(87)90235-0.
7. Gan S, Xie D, Dai H, Zhang Z, Di X, Li R, et al. Proliferative myositis and nodular fasciitis: a retrospective study with clinicopathologic and radiologic correlation. *Int J Clin Exp Pathol.* 2019;12(12):4319-28.
8. Mejías L, Solorzano J, Árabe J, Quiceno H, Pardo FJ. Miositis proliferativa con metaplasia ósea. Reporte de un caso. *Rev Esp Patol.* 2015;48(4):255-8. DOI: 10.1016/j.patol.2015.06.002.
9. Wei N, Xu WJ, Dong D, Gong YB. Proliferative myositis in the right brachioradialis: A case report. *Exp Ther Med.* 2017;13(5):2483-5. DOI: 10.3892/etm.2017.4269.