
Reporte de Caso

Angiolipoma sacro. Reporte de un caso

Sacral angiolipoma. A case report

Yanmara Betharte Sotomayor^{1*}. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5884-5872>

Gretel Mosquera Betancourt¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4547-9484>

Rogers Téllez Isla¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8019-6589>

Erick Héctor Hernández González¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-2765-1669>

Johenis Creagh García¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7949-3658>

¹Hospital Universitario Manuel Ascunce Domenech, Camagüey, Cuba.

*Autor para la correspondencia. Correo electrónico: ybetharte@gmail.com

RESUMEN

Fundamento: Los angioliomas son tumores benignos que se presentan en adultos con una localización, preferentemente, en el espacio epidural posterior torácico.

Objetivo: Presentar un caso que debutó con un traumatismo axial lumbosacro donde se evidenció una localización poco común de la lesión y sin relación con las estructuras del canal raquídeo.

Presentación del caso: Hombre de 25 años que se cayó y debido a ello se le hizo un traumatismo directo en la región sacrococcígea con dolor y aumento de volumen regional, asociado a parestesias glúteas. Los estudios radiológicos evidenciaron una fractura del cóccix y la presencia de una lesión ubicada en las partes blandas, de aspecto redondeado, homogéneo, sólido, de poco más de 50 mm de diámetro. Se le realizó tratamiento quirúrgico que consistió en coccigectomía subperióstica y exéresis macroscópica de la masa. El estudio histológico concluyó el diagnóstico de un angiolioma.

Conclusiones: Los angioliomas son tumores raros que tienen características radiológicas peculiares, requieren de alta sospecha clínico-imagenológica para indicar los estudios y el tratamiento. La exéresis total es recomendada para evitar la recurrencia y mejorar el pronóstico.

DeCS: ANGIOLIPOMA/cirugía; REGIÓN SACROCOCCÍGEA/diagnóstico por imagen; CÓCCIX/lesiones; CÓCCIX/cirugía; NEOPLASIAS DE LOS TEJIDOS BLANDOS/diagnóstico por imagen.

Palabras clave: Angiolioma; coccigectomía; tumor sacro; cóccix; región sacrococcígea; neoplasias de los tejidos blandos; diagnóstico por imagen; cirugía.

ABSTRACT

Background: Angiolipomas are benign tumors that appear in adults with special location in the posterior thoracic epidural position.

Objective: To present a case that appeared with a lumbosacral axial trauma where a non-common lesion location was evidenced with no relation among the structures of the spinal canal.

Case presentation: 25-year-old man who fell down, consequently suffered a painful direct trauma to the sacrococcygeal region and increased regional volume, associated with gluteal paresthesias. Radiological studies showed a fracture of the coccyx and presence of a lesion located in the soft tissues, with a rounded, homogeneous, solid aspect, a little more than 50 mm in diameter. Surgical treatment consisted of subperiosteal coccygectomy and macroscopic excision of the mass. Histological study concluded the diagnosis of an angiolipoma.

Conclusions: Angiolipomas are rare tumors with peculiar radiological features, they require high clinical-imaging suspicion for studies and treatment. Total excision is recommended to avoid recurrence and improve prognosis.

MeSH: ANGIOLIPOMA/surgery; SACROCOCCYGEAL REGION/diagnostic imaging; COCCYX/injuries; COCCYX/surgery; SOFT TISSUE NEOPLASMS/diagnostic imaging.

Keywords: Angiolipoma; coccygectomy; sacrum tumor; coccyx; sacrococcygeal region; diagnostic imaging; soft tissue neoplasms; surgery.

INTRODUCCIÓN

Los angioliomas son tumores benignos que suelen localizarse a nivel subcutáneo de las extremidades, el tronco y el cuello. Representan entre el 0.04 al 1.2 % de todos los tumores espinales primarios y cuando son hallados en el espacio epidural constituyen entre el 2 al 3 %. ^(1,2) Macroscópicamente, es una masa blanda rojiza encapsulada o no, que se separa con facilidad de la duramadre, que en su histología está formada por una proliferación de adipocitos y vasos sanguíneos maduros normales, de apariencia normal o que simulan angiomas capilares, angiomas cavernosos o malformaciones arteriovenosas. El tejido graso es de tipo maduro sin ninguna particularidad. La relación grasa/vaso varía de 1:3 a 2:3. Los tumores que contienen proliferación de células musculares lisas se subclasifican en angiomioliomas. ⁽³⁾

Estos tumores son más frecuentes en adultos de entre la cuarta y quinta década de la vida con una localización predominante en el tórax, seguido de la región lumbar, cervical y rara vez sacra. ^(1,3)

Aunque es un tumor benigno, se clasifican en infiltrantes y no infiltrantes; los no infiltrantes predominan en personas jóvenes y se presentan de forma habitual en el espacio epidural posterior y tienen mejor pronóstico, mientras que los infiltrantes son más raros y se pueden confundir con tumores malignos, ubicarse en el espacio epidural anterior y erosionar el hueso adyacente para producir un aspecto trabeculado en el cuerpo vertebral. ^(4,5)

La sospecha clínica de la presencia de un angiolioma, se establece con la correlación entre las manifestaciones clínicas y los hallazgos imagenológicos de la tomografía y la resonancia magnética dadas sus características peculiares. Sin embargo, estas pueden ser variables en relación al tamaño del tumor, hecho que puede dificultar el diagnóstico.

Hasta el 2015 se han reportado en la literatura 178 pacientes en 108 artículos. ^(5,6) En estos reportes, la edad tuvo un pico de incidencia a los 46 años con un predominio del sexo femenino.

Se presenta un caso que resulta novedoso por la baja incidencia de estos casos que apareció de forma progresiva después de un traumatismo axial lumbosacro donde se evidenció una lesión subcutánea sacra, interglútea cuyos resultados histológicos revelaron un angiolioma.

PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente blanco, masculino, de 25 años, con antecedentes de gastritis crónica. Fue ingresado por habersele hecho, debido a una caída (cayó sentado), un traumatismo directo en la región sacrococcígea; después del accidente comenzó con dolor y aumento de volumen, además de parestesias irradiadas a la región glútea derecha, con dificultad para mantener reposo en decúbito supino.

Al examen clínico:

En la región sacrococcígea se palpó escalón, con crepitación ósea donde se encontró lesión redondeada aproximadamente 4 cm de diámetro, blanda, depresible y dolorosa; por lo que se decidió su ingreso por Ortopedia con el diagnóstico radiológico de una fractura del cóccix y un absceso sacro. Se abrió y se constató salida de líquido claro; se le indicó tratamiento con antimicrobianos y se egresó con evolución favorable.

Un año después acude nuevamente a consulta de Ortopedia por presentar nueva colección en región sacra dolorosa acompañada de signos flogísticos, por lo que se le ingresó con la sospecha de un absceso sacro. Se recogió el antecedente de una segunda caída con traumatismo en la misma región. Refería dolor e imposibilidad para el decúbito supino y para sentarse. (Figura 1)



Fuente: Archivo personal del autor.

Figura 1. Se muestra encerrado en el círculo la lesión previa al acto operatorio.

Se le realizó ultrasonido (USG) de partes blandas donde se informó que a nivel de la región sacra e interglútea superior existía una imagen ecomixta, bien definida de 48 x 6 mm a 4.5 mm de la piel. Se decidió interconsulta con Neurocirugía por la recurrencia de la lesión y por el antecedente de la salida de un líquido claro.

Se realizaron estudios de tomografía axial computarizada (TAC) de columna lumbosacra en los cuales se demostró la fractura del cóccix, la presencia de una espina bífida a nivel de la segunda y tercera vértebra sacra próximo a la lesión que se ubicaba en las partes blandas por debajo de la piel, que tenía aspecto redondeado, homogéneo, sólido de 7 x 6 cm, ligeramente hiperdenso, bien delimitado, a nivel de la línea media, centrada en el punto de la fractura del cóccix y por debajo de la piel. No se demostró comunicación con el canal raquídeo, ni relación con la espina bífida sacra. (Figura 2)



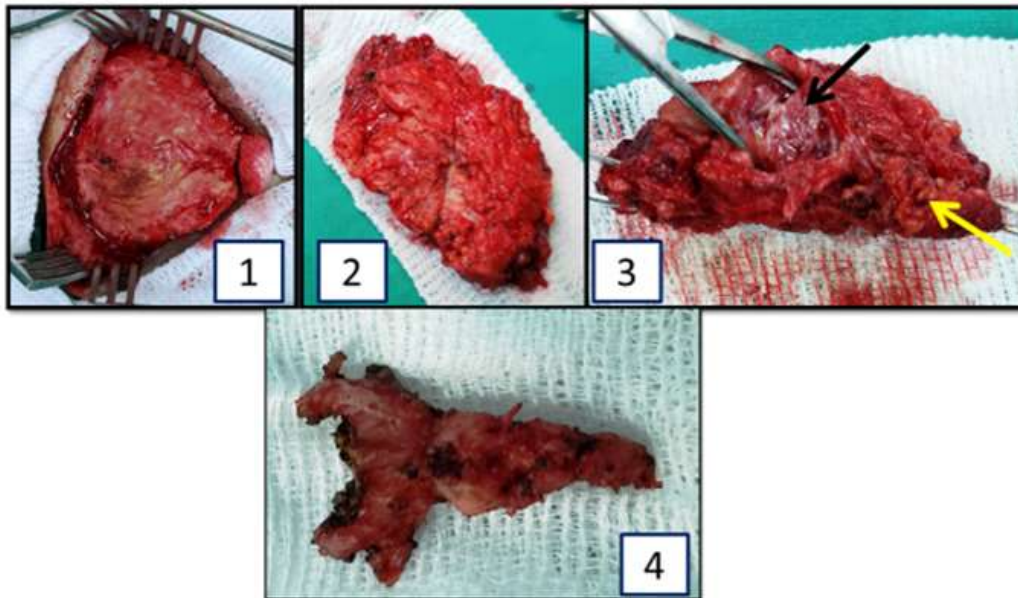
Fuente: Archivo de imágenes del servicio de Imagenología del Hospital Universitario Manuel Ascunce Domenech.

Figura 2. Imágenes de la TAC multicortes de columna lumbosacra donde se observa la fractura del cóccix y la lesión redondeada a nivel de las partes blandas.

Se interpretó como un proceso neoplásico y se decidió tratamiento neuroquirúrgico.

Previa anestesia general endotraqueal, se colocó al paciente en posición *genupectoral*. Se realizó incisión en línea media de la región sacrococcígea sobre la proyección de la lesión, se separó la piel y se identificó lesión bien delimitada, de color rojizo, vascularizada, adherida al plano muscular, de aspecto carnosos, que pudo decolarse hasta permitir su resección completa en distintos fragmentos. No se encontró comunicación con el canal raquídeo y no existió salida de líquido cefaloraquídeo.

Se realizó además la coccigectomía subperióstica. (Figura 3)

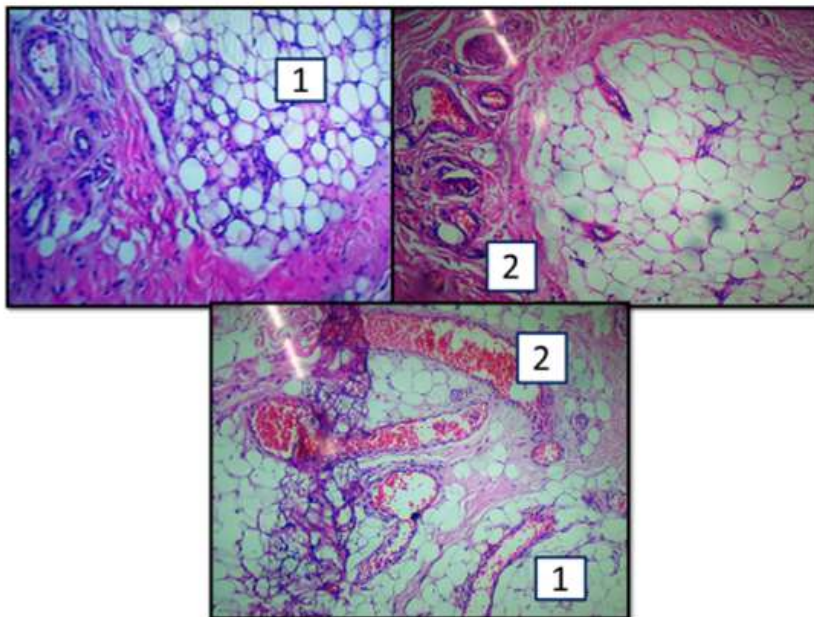


Fuente: Archivo personal del autor.

Figura 3. 1: Exposición de la lesión. 2: Resección en bloque. 3: Se identifica con la flecha negra los vasos sanguíneos y con la flecha amarilla el tejido graso. 4: Cócix resecaado.

El paciente se recuperó favorablemente sin dolor.

El estudio histopatológico (B: 3637-19) concluyó: El aspecto microscópico definió el diagnóstico de una lesión benigna, no encapsulada y con componente vascular predominante, del tipo angioliopoma. (Figura 4)



Archivo de imágenes del servicio de Anatomía Patológica del Hospital Universitario Manuel Ascunce Domenech.

Figura 4. Láminas del estudio histológico. Tinción hematoxilina y eosina donde se observan los elementos que permitieron el diagnóstico: 1: Tejido adiposo y 2: Vasos sanguíneos.

DISCUSIÓN

El primer caso de angioliipoma, según cita Aversa do Souto A, et al. ⁽⁵⁾, fue descrito por Berenbruch en 1890 en la autopsia de un joven de 16 años. En estos reportes el debut de los síntomas estuvo relacionado con la pérdida progresiva de la fuerza muscular (40 %), el dolor lumbar o torácico (22 %), la alteración de la sensibilidad (20 %) y la ciática uni o bilateral (5 %). Otro grupo de pacientes estuvo paucisintomático en el momento que se hizo el diagnóstico. ^(2,6)

En este caso, se arribó al diagnóstico después que se produjo un trauma axial lumbosacro, que provocó la fractura del cóccix y que permitió detectar el aumento progresivo de volumen en la región sacra e interglútea, acompañado de dolor en el área e impotencia funcional que le impedían realizar actividades habituales. Sin embargo, previo al traumatismo no existían manifestaciones de parestesias, disfunción nerviosa o debilidad muscular atribuible al crecimiento de la tumoración. El antecedente de una cirugía previa con salida de un líquido claro cobró gran peso porque permitió prestar atención sobre la masa encontrada.

Los autores consideran que el traumatismo directo y la formación del hematoma subsecuente pudieron haber estimulado el desarrollo de este tipo de neoplasia, aunque no se recoge esta relación causal en las referencias consultadas.

El aspecto tomográfico fue el de una lesión hiperdensa en comparación con los tejidos vecinos, circunscrita y de aspecto no infiltrante. La literatura revisada, adiona para estos casos, la existencia de grados variables de captación de contraste y la presencia de calcificaciones. Las formas infiltrantes pueden simular hemangiomas o hemangiopericitomas por el aspecto trabeculado. ^(7,8)

En los estudios por resonancia magnética, los angioliipomas no infiltrantes, se caracterizan por ser hiperintensos y heterogéneos. El grado de hipointensidad central en las imágenes de T1 pueden relacionarse con el grado de vascularización del tumor. Habitualmente no existe señal de vacío, lo cual los distingue de las malformaciones arteriovenosas y los hemangiomas capilares. En T2 pueden tener una intensidad de señal variable, aunque tienden a ser hiperintensos. ^(7,9)

Dada su ubicación en el raquis, vale la pena realizar el diagnóstico diferencial con los lipomas espinales puesto que en la región lumbosacra estos son más frecuentes y suelen asociarse a disrafismos. Algunos autores consideran, por esta razón, que los angioliipomas son estados más agresivos de los lipomas espinales. ^(6,7)

Otros diagnósticos diferenciales en la región son los sarcomas de partes blandas, el cavernoma, el hamartoma, el hemangiopericitoma, angiomioliipoma cutáneo y el pseudotumor calcificado. ^(1,10)

En relación con el tratamiento quirúrgico, la extirpación total de la lesión es lo más recomendado para los tumores no infiltrantes. En las formas infiltrantes, donde suele ser más difícil la resección completa, se intenta descomprimir las estructuras neurológicas involucradas para mejorar los síntomas. Otra opción de tratamiento, en los casos donde se demuestran un aumento del contenido vascular del tumor, es la embolización. ⁽¹⁾ La mayoría de los pacientes tiene buen pronóstico porque esos tumores presentan crecimiento lento y no se malignizan. ⁽⁷⁾

En este caso, la lesión neoformativa apareció de manera progresiva después de un traumatismo directo, quizás relacionado con la proliferación vascular que sigue a los procesos de recuperación después de hematomas localizados. En el acto operatorio se prefirió la realización de la exéresis macroscópica de la totalidad de la lesión,

que se encontraba en el plano perianal en un individuo con un pánículo adiposo muy disminuido; no estaba encapsulada, no tenía signos de infiltración sobre el tejido óseo vecino, lo que facilitó el tratamiento quirúrgico. Otra particularidad del caso, fue la ubicación poco común en las partes blandas del raquis sacrococcígeo, la ausencia de relación con la grasa peridural o con la duramadre del canal raquídeo y su desarrollo después de un traumatismo, quizás favorecido por el hematoma local.

CONCLUSIONES

Los angioliomas son tumores raros que por sus características peculiares requieren de la exéresis total para evitar la recurrencia y mejorar el pronóstico. Su diagnóstico puede tenerse en cuenta después de traumatismos directos que puedan favorecer la angiogénesis.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Mosquera Betancourt G, Hernández González EH. Generalidades de los tumores de la región sacrococcígea. *Gac Méd Espirit* [Internet]. 2015 [citado 7 Abr 2022];17(3):[aprox.14p.]. Disponible en: http://revgmespirituana.sld.cu/index.php/gme/article/view/1063/pdf_71
2. Gelabert-González M, García-Allut A. Spinal extradural angioliopoma: report of two cases and review of the literature. *Eur Spine J* [Internet]. 2009 [cited 2022 Apr 7];18(3):324-35. Available from: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC2899409/pdf/586_2008_Article_858.pdf
3. Rkhami M, Kedous MA, Achoura S, Zehani A, Bahri K, Zammel I. Epidural angioliopoma: A rare cause of spinal cord compression. *Int J Surg Case Rep* [Internet]. 2018 [cited 2022 Apr 7];45:72-76. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6000995/pdf/main.pdf>
4. Kang HI, Kim TW, Kim EJ, Park KH. Angioliopoma on the Lumbar Spine. *Korean J Spine* [Internet]. 2017 [cited 2022 Apr 7];14(3):112-114. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC5642094/pdf/kjs-14-3-112.pdf>
5. Aversa do Souto A, Domingues FS, Chimelli L, Lemos AM. Lumbosacral angioliopoma: Case report. *Arq Neuropsiquiatr* [Internet]. 2003 [cited 2022 Apr 7];61(2A):269-73. Available from: <https://www.scielo.br/j/anp/a/zvBhRMw3WHFzgyMp5DqJNfB/?format=pdf&lang=en>
6. Benvenuti-Regato M, De la Garza-Ramos R, Caro-Osorio E. Thoracic epidural spinal angioliopoma with coexisting lumbar spinal stenosis: Case report and review of the literature. *Int J Spine Surg* [Internet]. 2015 [cited 2022 Apr 7];9:67. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4710163/pdf/IJSS-9-14444-2067.pdf>
7. Konya D, Ozgen S, Kurtkaya O, Pamir NM. Lumbar spinal angioliopoma: case report and review of the literature. *Eur Spine J* [Internet]. 2006 [cited 2022 Apr 7];15(6):1025-1028. Available from: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3489428/pdf/586_2005_Article_1028.pdf
8. Bouali S, Maatar N, Bouhoula A, Abderrahmen K, Said IB, Boubaker A, et al. Spinal epidural angioliopomas: Clinical characteristics, management and outcomes. *Asian J Neurosurg* [Internet]. 2016 [cited 2022 Apr 7];11(4):348-351. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4974956/pdf/AJNS-11-348.pdf>
9. Gala FB, Aswani Y. Imaging in spinal posterior epidural space lesions: A pictorial essay. *Indian J Radiol Imaging* [Internet]. 2016 [cited 2022 Apr 7];26(3):299-315. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC5036327/pdf/IJRI-26-299.pdf>
10. Urculo E, Samprón N, Alfaro R, Arrazola M, Linazasoro G. Compresión medular por lipoma epidural dorsal. *Neurocirugía* [Internet]. 2008 [citado 7 May 2022];19(2):1556-60. Disponible en: <https://scielo.isciii.es/pdf/neuro/v19n2/7.pdf>

Conflictos de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de interés en esta investigación.

Recibido: 12/05/2022

Aprobado: 27/09/2022



Esta obra está bajo una [licencia de Creative Commons Atribución-NoComercial 4.0 Internacional](https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/)