

Casos Clínicos

Mullerianose Vesical: A propósito de um caso clínico

Nuno Tomada, João Silva, Pedro Vendeira, Paulo Diniz, Macedo Dias*,
Francisco Cruz

Serviços de Urologia e Anatomia Patológica* do Hospital de S. João – Porto

Resumo

Apresentamos um caso clínico de *mullerianose vesical*. Trata-se de uma patologia benigna do sistema de Müller, podendo englobar componentes de endometriose, endocervicose e/ou endosalpingiose. Quando se estabelece o diagnóstico histológico excluindo a presença de adenocarcinoma, o tratamento local é suficiente. A doente foi submetida com sucesso a Ressecção Transuretral (RTU) completa da lesão. Dada a raridade desta entidade, a história natural está pouco documentada, sendo obrigatória uma vigilância apertada. Os autores efectuam a discussão dos achados anatomopatológicos, e a revisão da literatura.

Palavras-chave: *Mullerianose*; Neoplasia vesical

Abstract

We present a clinical case of bladder *mullerianosis*. It is a benign pathology of the Müller's system, incorporating endometriosis, endocervicosis and/or endosalpingiosis foci. When adenocarcinoma is excluded local treatment is sufficient. The patient successfully underwent a complete transurethral resection of the lesion. The natural history is elusive, making strict follow-up mandatory. The authors discuss anatomical and pathological findings, with a review of the literature.

Key-Words: *Mullerianosis*; Bladder neoplasia

Introdução

As lesões de *mullerianose* são proliferações glandulares tumoriformes que derivam de células do sistema acessório de Müller originárias da cavidade peritoneal/celómica, e são similares às que revestem a trompa de Falópio, cavidade uterina e endocolo. A diferenciação metaplásica endometriode destes elementos conduz à endometriose, que constitui a entidade clínica mais frequentemente observada isoladamente. A diferenciação mucinosa do tipo endocervical, denominada endocervicose, é mais rara, e é considerada uma entidade

distinta da endometriose. É geralmente identificada incidentalmente no exame histológico do peritônio pélvico. A sua localização vesical é extremamente rara com apenas 11 casos descritos na literatura anglosaxónica. Clemente e Young, em 1994, descreveram os primeiros 6 casos. Nesta série de doentes verificou-se o atingimento de mulheres em idade fértil, dos 31 aos 44 anos, com queixas de dor pélvica, disúria, polaquiúria, hematúria, dispareunia e dismenorrea, podendo apresentar exacerbação da sintomatologia com os catamênios. A presença isolada ou concomitante de alterações histológicas sugestivas de endosalpingiose (presença de



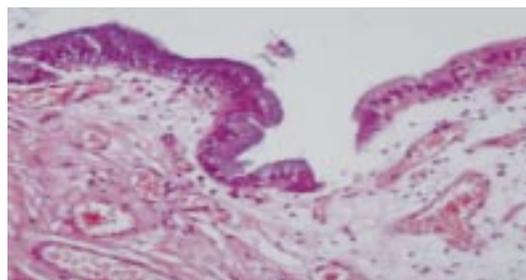
Fig. 1 - Ecografia Vesical: formação nodular ecogénica vegetante na parede postero-superior da bexiga com 21 mm de maior diâmetro

epitélio glandular da trompa de Falópio numa localização ectópica) é ainda mais rara. A existência de mais de dois componentes derivados do sistema mülleriano implica que a designação de *mullerianose* seja a mais adequada. Apresentamos um caso clínico de *mullerianose* vesical descoberto na sequência do estudo de sintomas do tracto urinário baixo em mulher de 40 anos, submetida posteriormente a RTU completa da lesão.

Caso Clínico

Mulher de 40 anos, referenciada por quadro clínico de polaquiúria, disúria e sensação de peso suprapúbico, exacerbado nos cataménios, com alguns anos de evolução. Sem noctúria, hesitação, alteração do calibre do jacto urinário, intermitência ou sensação de esvazimento vesical incompleto. Sem antecedentes patológicos relevantes, nomeadamente infecções urinárias de repetição ou litíase genitourinária. Sem medicação habitual. História ginecológica e obstétrica: 2 Gesta, 2 Para, partos eutócicos. Cataménios de 3-5 dias, interlúnios regulares. Como método anticoncepcional utilizava Dispositivo IntraUterino. Exame objectivo sem alterações relevantes. Estudo analítico (hemograma completo, bioquímica sumária e sedimento urinário) sem alterações, nomeadamente hematória microscópica ou leucocitúria.

No estudo imagiológico subsequente verificou-se ecograficamente a presença de formação nodular ecogénica vegetante na parede posterosuperior da bexiga com 21 mm de maior diâmetro, de contornos irregulares (fig1). Na TAC abdomino-pélvica não se evidenciaram lesões secundárias ganglionares retroperitoneais, no parênquima hepático ou nas glândulas supra-renais. Na Urografia Endovenosa não se observaram imagens de lesões síncronas do urotélio.



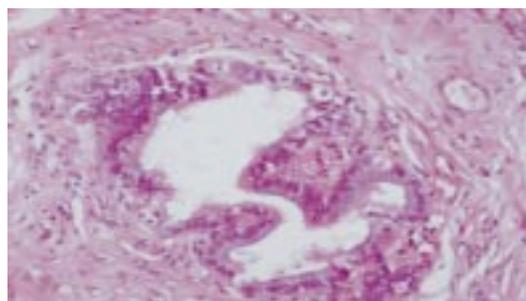
a



b



c



d

Fig. 3 - Histopatológico: a, b e c: envolvimento da lâmina própria e da muscularis própria por quistos e túbulos revestidos por epitélio tipo mülleriano, e substituição focal do epitélio urotelial; d: glândulas

A doente realizou Cistoscopia que confirmou a presença de uma formação nodular, vegetante, com áreas de coloração arroxeada alternada com eritema, com 2,5 cm de maior diâmetro, localizada na parede postero-superior. A biópsia da lesão revelou a presença de inclusões de células do epitélio de Müller com metaplasia glandular mucosecretora do tipo endocervical e metaplasia de células cilíndricas ciliadas do tipo tubar.

Após ter sido submetida a RTU completa da lesão vesical, a doente teve alta no 3º dia de pós-operatório. O estudo histológico confirmou a presença de inclusões glandulares de natureza mülleriana. Aos 30 dias do pós-operatório, a doente apresentava resolução dos sintomas, com o exame cistoscópico a confirmar a ausência de massa residual.

Discussão

A *mullerianose* é um achado incidental cada vez mais comum na mulher em idade reprodutiva ou em mulheres submetidas a cirurgia ginecológica na menopausa. Até há bem pouco tempo a endometriose e a endocervicose apresentavam-se como as únicas lesões proliferativas benignas do epitélio de Muller na bexiga da mulher. Apenas 5 casos de endosalpingiose vesical estão descritos, associados a pequenos focos de endometriose e/ou endocervicose.

No presente caso clínico, o exame histológico revelou o envolvimento da lâmina própria e da muscularis própria por quistos e túbulos revestidos por epitélio tipo mülleriano que focalmente substituíam o epitélio urotelial. As glândulas eram predominantemente revestidas por epitélio tipo tubar o que representa endosalpingiose. Também era evidente um componente menor de glândulas revestidas por células colunares mucinosas (endocervicose). Não foram evidentes alterações histológicas sugestivas de endometriose.

O diagnóstico diferencial deve incluir neoplasia urotelial ou do úraco, cistite glandular e/ou cística, e remanescentes do úraco. Na avaliação destes doentes é importante excluir a presença de um tumor mucinoso primário noutra localização.

O diagnóstico de endosalpingiose apresenta implicações para o tratamento. Enquanto que a endometriose pode ser controlada farmacologicamente, a en-

dosalpingiose é relativamente hormono-resistente. As suas características histológicas e o follow-up disponível à data sugerem tratar-se de uma patologia benigna. Quando é diferenciado com segurança do adenocarcinoma, pode ser tratado através de cistectomia parcial ou RTU completa. Contudo, uma vez que a história natural está pouco documentada, o follow-up deverá ser prolongado por vários anos incluindo para tal as técnicas imagiológicas mais adequadas a cada caso.

Bibliografia

- 1- Clement PB, Young RH: Endocervicosis of the urinary bladder. A report of six cases of a benign müllerian lesion that may mimic adenocarcinoma. *Am J Surg Pathol.* 1992 Jun; 16 (6): 533-542
- 2- Jones EC, Gleave ME, Andreou C: Urinary bladder endocervicosis: a case report and review of the literature. *Can J Urol.* 1996 Mar; 3 (1): 206-210
- 3- Julie C, Boye K, Desgrappes A, et al: Endocervicosis of the urinary bladder. Immunohistochemical comparative study between a new case and normal uterine endocervices. *Pathol Res Pract.* 2002; 198 (2): 115-120
- 4- Parivar F, Bolton DM, Stoller ML: Endocervicosis of the bladder. *J Urol* 1995 Apr; 153 (4): 1218-19
- 5- Rodriguez R, Alfert H: Endocervicosis of the bladder: a rare mucinous analogue of endometriosis. *J Urol.* 1997 Apr; 157 (4): 1344
- 6- Spencer SL, Rubin MA, Hussain H, et al: Complete transurethral resection of bladder endocervicosis. *J Urol.* 2001. Feb; 165 (2): 524
- 7- Young RH, Clement PB: Müllerianosis of the urinary bladder. *Mod Pathol* 1996 Jul; 9 (7): 731-7
- 8- Arai Y, Tsuzuki M, Okubo Y et al: A case of submucosal endosalpingiosis in the urinary bladder. *Nippon Hinyokika Gakkai Zasshi* 1999. 90: 802
- 9- Margulis V, Lemack GE, Molberg K, et al: Bladder müllerianosis in a woman with lower urinary tract symptoms and hematuria. *J Urol* 2001. 165 (6): 1996-7