

HAMARTOMA ADQUIRIDO DE MÚSCULO LISO: RELATO DE CASO – VERSIÓN PORTUGUÉS Y ESPAÑOL

ACQUIRED SMOOTH MUSCLE HAMARTOMA: CASE REPORT



ENE - DIC 2023 | Vol. 104

Caso clínico patológico

Rev. argent. dermatol. 2023; 104 ;08; 67 - 75.

Publicado en línea 2023, diciembre / Published online 2023 December

Hamartoma adquirido de músculo liso: relato de caso – Versión Portugués y Español

Autores | Contacto**Lissî Lunardi Sbroglio[1], Lucchetti Ana Carolina[2], Goulart Rey Curty Erica[3] Martins Brotas Arles[4]**

1- Lunardi Sbroglio Lissî: Médica do Programa de Residência Médica em Dermatologia, email lissiesbroglio@gmail.com, ORCID iD: <https://orcid.org/0000-0002-0888-9065>

Contribuição no artigo: concepção e planejamento do estudo, elaboração e redação do manuscrito, revisão crítica da literatura, revisão crítica do manuscrito.

2-Lucchetti Ana Carolina– Médica do Programa de Pós Graduação em Dermatologia, email carol.lucchetti@hotmail.com, ORCID iD: <https://orcid.org/0000-0002-5032-6733>

Contribuição no artigo: concepção e planejamento do estudo, elaboração e redação do manuscrito, revisão crítica da literatura, revisão crítica do manuscrito.

3-Goulart Rey Curty Erica – Médica do Programa de Pós Graduação em Dermatologia, email erica.curty@gmail.com, ORCID iD: <https://orcid.org/0000-0002-9227-7343>

Contribuição no artigo: concepção e planejamento do estudo, elaboração e redação do manuscrito, revisão crítica da literatura.

4-Martins Brotas Arles– Docente do Departamento de Dermatologia da Universidade do Estado do Rio de Janeiro – UERJ, email arlesbrotas@gmail.com, ORCID iD: <https://orcid.org/0000-0001-9830-4763>

Contribuição no artigo: participação intelectual em conduta propedêutica e/ou terapêutica do caso estudado, aprovação da versão final do manuscrito, revisão crítica do manuscrito.

Departamento do Dermatologia, Hospital Universitário Pedro Ernesto, Universidade do Estado do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, RJ, Brasil

Corresponding author: Médica Residente Lissî Lunardi Sbroglio. Dept^o Dermatologia/Universidade Estadual do Rio de Janeiro. Rua São Manuel 20, Botafogo, 22290-010 Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Brasil. **Mobile:** 55 51 999083880; **e-mail:** lissiesbroglio@gmail.com

FINANCIAMENTO: Esta pesquisa não recebeu nenhum subsídio específico de agências de fomento público, comercial ou setores sem fins lucrativos

- **Recibido: 11/02/2021**
- **Recibido 1º Corrector: 27/07/2023**
- **Recibido 2º corrector: 24/11/2023**
- **Aceptado para su Publicación: 03/12/2023**

Los autores declaramos no poseer ningún tipo de conflicto de interés

RESUMO

O hamartoma de músculo liso é uma malformação cutânea benigna e rara, de natureza congênita ou adquirida. A sobreposição à outras doenças é descrita na literatura, como a melnose de Becker, especialmente em caso de lesões com hipertrichose e hiperpigmentação. Descrevemos aqui, quadro de paciente masculino de 21 anos, com hamartoma de músculo liso adquirido, que é uma manifestação rara e com poucos relatos descritos. Ressaltamos a necessidade de avaliar possível associação com a melnose de Becker, enfatizando que nem sempre os aspectos clínicos

ABSTRACT:

Smooth muscle hamartoma is a rare and benign cutaneous malformation, congenital or acquired. Overlapping other diseases is described in the literature, such as Becker's Melanosis, especially in the case of lesions with hypertrichosis and hyperpigmentation. We describe here a 21-year-old male patient with acquired smooth muscle hamartoma, which is a rare manifestation and with few reports described. We emphasize the need to

RESUMEN

El hamartoma de músculo liso es una malformación cutánea poco común y benigna, congénita o adquirida. En la bibliografía se describen otras enfermedades superpuestas, como la melanosia de Becker, especialmente en el caso de lesiones con hipertrichosis e hiperpigmentación. Describimos a un paciente masculino de 21 años con hamartoma de músculo liso adquirido, que es una manifestación rara y con pocos reportes descritos. Destacamos la necesidad de valorar una posible asociación con la melanosia de Becker, enfatizando que los aspectos clínicos, aun con la histopatología, no siempre permiten la individualización.

PALAVRAS-CHAVE

Hamartoma, músculo liso, manifestações clínicas, diagnóstico, diagnóstico diferencial

PALABRAS CLAVE

Hamartoma, músculo liso, manifestaciones clínicas, diagnóstico, diagnóstico diferencia

assess a possible association with Becker's melanosis, emphasizing that clinical aspects, even when reconciled with histopathology, do not always allow for individualization.

KEY WORDS

Hamartoma, smooth muscle, clinical manifestations, diagnostic, differential diagnosis

INTRODUÇÃO:

O hamartoma de músculo liso (HML) é uma malformação cutânea benigna e rara, de natureza congênita ou adquirida. Apresenta-se como placas de consistência firme ou elástica¹, normocrômicas ou hiperpigmentadas, mais comumente localizadas em tronco, nádegas ou extremidades proximais. Alterações na superfície, como pequenas pápulas foliculares ou hipertricose local, podem estar presentes^{2,3}. A sobreposição à outras doenças é descrita na literatura, como a melnose de Becker, especialmente em caso de lesões com hipertricose e hiperpigmentação. Nesses casos o diagnóstico torna-se mais difícil, devido a semelhança na apresentação clínica e anatomopatológica destas lesões.²

A histopatologia do HML caracteriza-se pela presença de múltiplas fibras musculares lisas, bem diferenciadas, que seguem diferentes direções, dispostas aleatoriamente na derme superficial ou profunda.⁴ A intervenção terapêutica pode ser indicada para melhora estética.¹

INTRODUCCIÓN

El hamartoma de músculo liso (HML) es una malformación cutánea, benigna y rara, congénita o adquirida. Se presenta como placas de consistencia firme o elástica,¹ normocrômicas o hiperpigmentadas, más comúnmente localizadas en tronco, glúteos o extremidades proximales. Pueden presentarse cambios superficiales, como pequeñas pápulas foliculares o hipertrichosis local.^{2,3}

El solapamiento con otras enfermedades está descrito en la bibliografía, como la melanosis de Becker, especialmente en el caso de lesiones con hipertrichosis e hiperpigmentación. En estos casos el diagnóstico se vuelve más difícil debido a la similitud en la presentación clínica y anatomopatológica de estas lesiones.²

La histopatología del HML se caracteriza por la presencia de múltiples fibras de músculo liso bien diferenciadas que siguen diferentes direcciones, dispuestas al azar en la dermis superficial o profunda.⁴ La intervención terapéutica puede estar indicada para la mejora estética.

RELATO DE CASO

Paciente de 21 anos, masculino, natural do Rio de Janeiro, sem comorbidades, relatava surgimento de lesões no braço e nas costas desde os 8 anos de idade com aumento lento e proporcional ao seu desenvolvimento etário. Ao exame notava-se placa, com múltiplas lesões maculo-papulosas na superfície, de limites bem definidos e bordas irregulares, contorno geográfico, assintomáticas, localizada no tronco pósterio-superior esquerdo estendendo-se até face posterior do braço esquerdo (Figura 1). Lesão eritêmato-hipercrômicas (Figura 2) acompanhada de hipertricose com pelos terminais, mas que se desprendiam à mínima tração. (Figura 3)

Devido aos aspectos clínicos, foi aventada a hipótese diagnóstica de HML adquirido associado à melnose de Becker. O exame anatomopatológico, por sua vez, confirmou apenas a hipótese de HML, uma vez que na amostra analisada, não havia hiperpigmentação da camada basal – que configuraria a sobreposição de ambas as doenças, como considerado inicialmente (Figuras 4 e 5).

Devido o quadro apresentar bom prognóstico, sem associação com manifestações sistêmicas e sem potencial de malignização, não é necessário intervenção terapêutica. Dessa maneira, foi optado por conduta conservadora do paciente com acompanhamento clínico da lesão.

RELATO DEL CASO

Paciente masculino de 21 años, nacido en Río de Janeiro sin comorbilidades, refiere aparición de lesiones en brazo y espalda desde los 8 años, con un lento aumento proporcional a su edad. A la exploración se aprecia una placa con múltiples lesiones maculo-papulosas en superficie, de límites bien definidos y bordes irregulares, de contorno geográfico, asintomática, localizada en tronco posterosuperior izquierdo, que se extiende hasta cara posterior de brazo izquierdo (Figura 1). Lesiones eritematosas e hipercrómicas (Figura 2) acompañadas de hipertrichosis con pelos terminales, pero que se desprenden a la menor tracción (Figura 3).

Por los aspectos clínicos, se sugirió la hipótesis diagnóstica de HML adquirido asociado a melanosís de Becker. El examen anatomopatológico, por su parte, sólo confirmó la hipótesis de HML, ya que la muestra analizada no presentó hiperpigmentación de la capa basal, lo que configuraría el solapamiento de ambas enfermedades, como se consideró inicialmente (Figuras 4 y 5).

Debido a que la condición tiene buen pronóstico, sin asociación con manifestaciones sistémicas ni potencial maligno, la intervención terapéutica no es necesaria. Por ello, se optó por un abordaje conservador con seguimiento clínico.



Figura 1 – Placa eritemato-hipercrômicas, com múltiplas lesões maculo-papulosas na superfície, de limites bem definidos e bordas irregulares, no tronco póstero-superior esquerdo estendendo-se até face posterior do braço esquerdo.

Figura 1. Placa eritemato-hipercrômica, con múltiples lesiones maculo-papulosas en superficie, de límites bien definidos y bordes irregulares, en tronco póstero-superior izquierdo, extendiéndose hasta la parte posterior del brazo izquierdo



Figura 2 – Foto em maior aumento, demonstrando eritema e hiperpigmentação presentes na lesão.

Figura 2. Foto a mayor aumento, que muestra eritema e hiperpigmentación presentes en la lesión



Figura 3 – Foto em maior aumento, evidenciando componente papuloso e hipertricose

Figura 3. Foto a mayor aumento, que evidencia componente papuloso e hipertrichosis

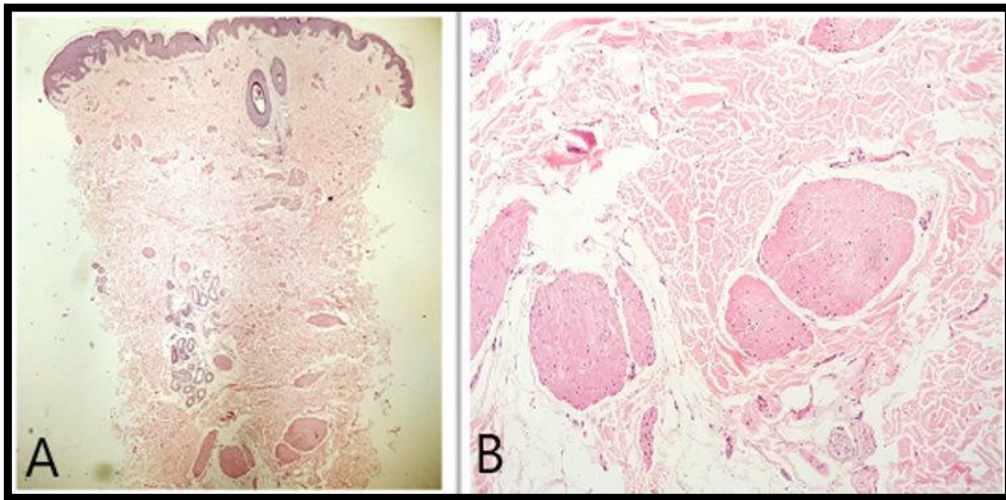


Figura 4 – A: Anatomopatológico demostrando hiperplasia epidérmica e feixes de músculos lisos hiperplásicos dispostos aleatoriamente na derme – (HE 40X).

B: Anatomopatológico demonstrando em maior aumento feixes de músculos lisos hiperplásicos de orientação variável – (HE 200X).

Figura 4. A: Estudio histopatológico que demuestra hiperplasia epidérmica y haces de músculos lisos hiperplásicos dispuestos aleatoriamente en dermis (HE 40X)

B: Estudio histopatológico que demuestra, a mayor aumento, haces de músculos lisos hiperplásicos de orientación variable (HE 200X)

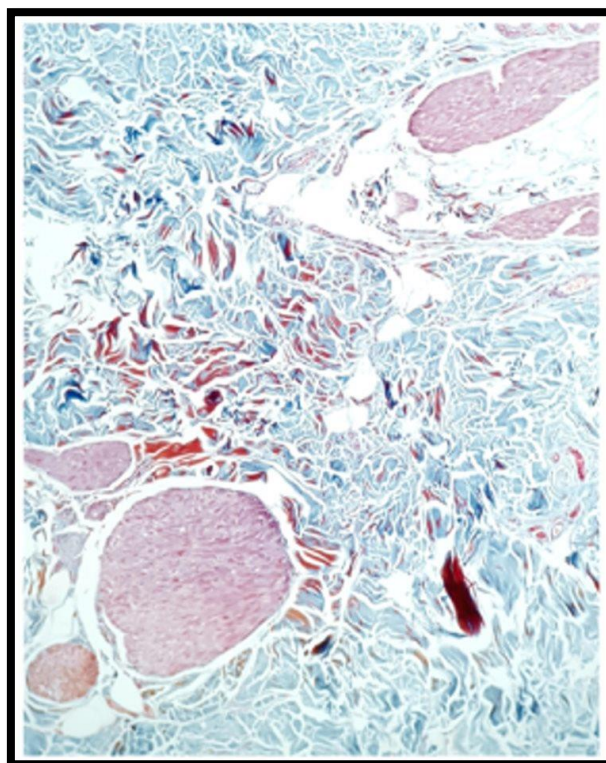


Figura 5 – Feixes de músculos lisos hiperplásicos no estroma dérmico, que se coram de marrom-avermelhado pelo (Tricromo de Masson – 200x).

Figura 5. Haces de músculos lisos hiperplásicos en el estroma dérmico, que se colorean de marrón-bermellón con Tricrómico de Masson (200x)

DISCUSSÃO

Os HML são proliferações dérmicas benignas de células musculares lisas, de natureza congênita ou adquirida. De acordo com Malika A Ladha, em artigo revisado de 2019, os casos adquiridos, como o descrito acima, são mais raros, havendo menos de 20 casos relatados na literatura pesquisada.⁵ A maioria dos casos de HML adquirido originam-se das células do músculo liso localizadas no músculo eretor do pêlo e cremastérico (relacionado à movimentação testicular).⁶

O HML adquirido geralmente está localizado no antebraço, peito, pescoço, bolsa escrotal, pênis, grandes lábios ou ombro, como no caso relatado.⁶ Apresenta-se como uma placa, discretamente hiperpigmentada associada ou não à hipertricose. A sintomatologia, quando presente, é discreta, podendo haver prurido, dor ou dormência. Na forma congênita, diferente da adquirida, é descrito o pseudo-sinal de Darier, que consiste em um enrijecimento transitório da área afetada, com piloereção.⁶

O exame histopatológico demonstra hiperplasia epidérmica e na derme reticular, há feixes de músculos lisos hiperplásicos acima da gordura subcutânea, de orientação variável.^{6,7} Na coloração pelo tricromo de Masson, os feixes musculares coram com a cor vermelha.⁶ A avaliação por microscopia eletrônica demonstra miofilamentos, lâmina basal contínua, corpos densos, vesículas pinocitóticas e fibras nervosas.⁷

Devido aos achados clínicos do HML adquirido, com a frequente presença de hiperpigmentação e hipertricose, o principal diagnóstico diferencial a ser considerado é o melanose de Becker.⁷ Clinicamente este se apresenta como máculas acastanhadas ou placas discretamente elevadas, bem definidas e uniformemente hiperpigmentadas com hipertricose e espessamento da pele afetada, normalmente se manifestando na puberdade. A histopatologia apresenta hiperplasia com achatamento na porção inferior das cristas e aumento da pigmentação da camada basal. Ocasionalmente, também é possível encontrar proliferação dos músculos lisos na derme.⁷ Este aspecto histopatológico explicaria o espessamento da lesão em alguns casos.⁸ Nota-se assim, sobreposição de características clínicas, evolutivas e histopatológicas entre o HML e a melanose de Becker, gerando controvérsia na literatura se estes representariam entidades clínico-patológicas distintas ou, se na realidade, são consideradas diferentes manifestações dentro de um mesmo espectro clínico.^{6,7}

Além da melanose de Becker, outros diagnósticos diferenciais devem ser aventados como mastocitoma, mancha café-com-leite e nevo melanocítico congênito agminado. Devido à natureza benigna e ausência de sintomatologia, como no caso acima relatado, geralmente a conduta é conservadora.⁷ Porém, por razões estéticas, pode ser optado pela depilação com luz pulsada ou laser (diodo, alexandrite, Nd: YAG) ou, em casos específicos, excisão cirúrgica.⁶

O HML adquirido é uma manifestação rara e com poucas descrições na literatura pesquisada. Torna-se necessário avaliar a possível associação com a melanose de Becker, ressaltando que nem sempre os aspectos clínicos, mesmo quando conciliados com a histopatologia, permitem a individualização. Representando assim, uma possível desordem espectral.

DISCUSIÓN

Las HML son proliferaciones dérmicas benignas de células de músculo liso congénitas o adquiridas. Según Malika A Ladha, en un artículo revisado en 2019, los casos adquiridos, como el presentado, son más raros, con menos de 20 casos descriptos en la bibliografía.⁵

La mayoría de los casos de HML adquirida se originan en las células de músculo liso del erector del pelo; también cremastérico relacionado a desplazamiento de elementos testiculares.

Esta HML adquirida puede localizar en antebrazo, tórax, cuello, escroto, pene, labios mayores y en hombro,⁶ como en el caso descripto.

El HML se presenta como una placa discretamente pigmentada asociada o no a hipertrichosis; cuando está presente, la sintomatología es discreta y puede haber prurito, dolor o hipoestesia. En la forma congénita, a diferencia de la adquirida, puede observarse el pseudosigno de Darier con enrojecimiento y piloerección de la zona irritada.

El examen histopatológico demuestra hiperplasia epidérmica y en dermis reticular, haces de músculo liso hiperplásico por sobre la grasa subcutánea con orientación variable.^{6,7} Con el tricómico de Masson los haces se tiñen de rojo.⁶ Mediante microscopía electrónica, se observan miofilamentos, lámina basal continua, cuerpos densos, pinocitosis y fibras nerviosas.⁷

Por clínica, el diagnóstico diferencial más importante es la melanososis de Becker, que se presenta como máculas parduzcas, también levemente elevadas con hipertrichosis y engrosamiento. Se manifiesta en la pubertad, y en la anatomía patológica se observa hiperplasia con aplanamiento en la parte inferior de las crestas y aumento de pigmentación en la capa basal;⁷ ocasionalmente, pueden observarse algunos haces de músculo liso en dermis, que explicaría el eventual engrosamiento lesional.⁸ Entonces puede verse superposición de características clínicas, patológicas y evolutivas entre HML y melanososis de Becker, que pueden originar controversia acerca de si estamos ante entidades diferentes o bien distintas manifestaciones de un mismo espectro clínico.^{6,7}

Se pueden pensar otros diagnósticos diferenciales, como mastocitoma, mancha café con leche o nevo melanocítico congénito agminado.

Debido a su naturaleza benigna, la conducta es conservadora;⁷ no obstante, por motivos estéticos se puede efectuar depilación con luz pulsada o LASER diodo, Alexandrita, Nd YAG.⁶

La HML adquirida es rara, con pocas descripciones. También es necesario evaluar asociación con melanososis de Becker y tener en cuenta que no siempre es posible su individualización.

Es posible que ambos cuadros correspondan a diferentes manifestaciones de un mismo espectro.

Referencias

1 – Gomes CTV, Benini T, Gurfinkel Y, Mileo RA, Barboza TC. Hamartoma de músculo liso. *Revista da Faculdade de Ciências Médicas de Sorocaba*. 2016;18: 54

2 – Günlemez A, Bayramgürler D, Erçin MC, Aktürk A, Arısoy AE. Congenital smooth muscle hamartoma on the scalp. *International Journal of Dermatology*. 2009; **48**: 633–635. doi: 10.1111/j.1365-4632.2009.03977.x

3 – Zarineh A, Kozovska ME, Brown WG, Elder DE, Rabkin MS. Smooth muscle hamartoma associated with a congenital pattern melanocytic nevus, a case report and review of the literature. *Journal of Cutaneous Pathology*. 2008; **35**: 83–86. doi: 10.1111/j.1600-0560.2007.00966.x

4- Ragsdale BD. Tumors With Fatty, Muscular, Osseous, and/or Cartilaginous Differentiation. *In: Lever's histopathology of the skin.* – 10th ed./ editor-in-chief Davi E. Eld. 2009.1057-1107.

5- Ladha MA, Remington T. Acquired smooth muscle hamartoma: A case report on the lower extremity with hidrosis. *SAGEopen medical case reports*. 2019; **7**: 1-2. doi: 10.1177/2050313X19893834.

6- Adulkar SA, Dongre AM, Thatte SS, Khopkar US. Acquired smooth muscle hamartoma. *Indian J Dermatol Venereol Leprol* 2014; **80** :483-483 doi: 10.4103/0378-6323.140351.

7- Bari A, Rahman S. Acquired smooth muscle hamartoma. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2006; **72**:178 doi: 10.4103/0378-6323.25660.

8- Kaddu S, Kohler S. Neoplasias de músculo, tecido adiposo e cartilagem. *In: Bologna, Jean L. – Dermatologia – 3ª Ed 2015. 5796-5839*