

## Caso Clínico/Case Report

### Mullerianose da bexiga (endosalpingiose): caso clínico

### Mullerianosis of the urinary bladder (endosalpingiosis): a case report

Susana Carvalho\*, Susana Fraga\*, Umbelina Ramos\*\*\*, Sónia Sousa\*\*, Rui Santos\*\*\*\*,  
Bercina Candoso\*\*

*Maternidade Júlio Dinis, Porto*

#### ABSTRACT

The authors present a case report of endosalpingiosis (mullerianosis) of the urinary bladder, diagnosed while studying the cause of primary infertility. A mass involving the posterior wall of the urinary bladder, was diagnosed by ultrasound and treated by transurethral resection. Microscopic examination showed prominent involvement of lamina and muscularis propria by mullerian type epithelium, with components of endometriosis and endosalpingiosis. Endosalpingiosis of the urinary bladder was documented for the first time in 1996 and very few cases have been reported to date.

#### INTRODUÇÃO

O termo mullerianose refere-se segundo Robert Young e Clement à presença de pelo menos dois epitélios glandulares ectópicos mullerianos<sup>1</sup>. Batt e al., numa publicação de 2007, descreve a mullerianose como uma estrutura orgânica de origem embrionária composta por restos mullerianos-endométrio normal, endosalpinge normal, endocérvix normal-isolados ou em combinação, incorporados noutros órgãos normais durante a organogénese.<sup>2</sup>

O diagnóstico mais preciso de mullerianose da bexiga define-se pela presença na parede vesical de duas ou três proliferações benignas do epitélio glandular mulleriano (endometriose, endocervicose, e endosalpingiose).

A endosalpingiose define-se pela presença de epitélio glandular da trompa de Falópio fora da sua localização habitual. Este fenómeno já foi reconhecido por ginecologistas, verificando-se a sua ocorrência na cavidade pélvica após salpingectomia.

Os autores descrevem um caso clínico de mullerianose da bexiga tipo endosalpingiose diagnosticado no decurso de um estudo de infertilidade primária de 3 anos. Após o diagnóstico ecográfico de uma massa de 3,5 cm de diâmetro máximo que envolvia a parede posterior da bexiga, procedeu-se a cistoscopia com ressecção transuretral da mesma. O exame histológico

\*Interna Complementar de Ginecologia e Obstetrícia da Maternidade Júlio Dinis

\*\*Assistente Hospitalar de Ginecologia e Obstetrícia da Maternidade Júlio Dinis

\*\*\*Assistente Hospitalar de Anatomia Patológica da Maternidade Júlio Dinis

\*\*\*\*Assistente Hospitalar de Urologia

revelou envolvimento da mucosa e muscular própria por túbulos e cistos delimitados por epitélio mulleriano, característico de endometriose e endosalpingiose.

Os poucos casos documentados de endosalpingiose da bexiga descritos estão tipicamente associados com uma ou duas das outras lesões mullerianas benignas.

### CASO CLÍNICO

Mulher de 28 anos, caucasiana, sem antecedentes médico-cirúrgicos relevantes. Menarca aos 13 anos, interlúnios 28/30 dias, cataménios de 5 dias, coitarca aos 18 anos. Utilização de contraceptivos orais durante 6 anos, tendo suspenso há 3 anos. Referenciada à Unidade de Reprodução Medicamente Assistida/Esterilidade em 2004, por infertilidade primária de 3 anos.

Na anamnese referia dismenorreia e negava outras queixas, nomeadamente, metrorragias, dor pélvica, dispareunia e queixas urinárias. Exame ginecológico normal, sem massas palpáveis ao exame bimanual.

No decurso do estudo da Infertilidade foram efectuados exames complementares nomeadamente, ecografia transvaginal (figuras 1 e 2) que revelou útero em anteversão, de dimensões normais; formação nodular na parede posterior e superior da bexiga intraluminal de 35x29x27 mm (confirmado por cistoscopia); no anexo direito visualizou-se formação cística de 28x23 mm, com aspecto sugestivo de endometrioma; no anexo esquerdo formação cística de 52x42mm e aspecto sugestivo de endometrioma.

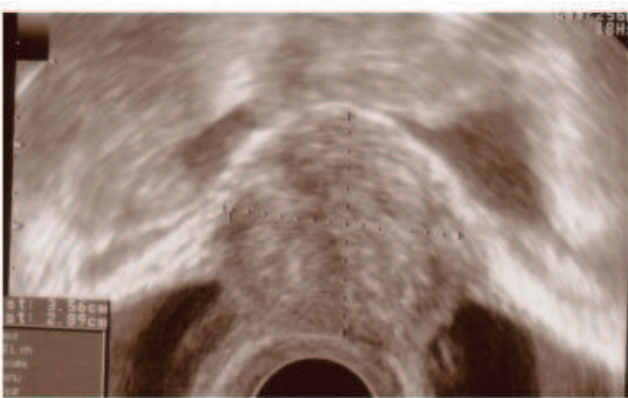


Figura 1. Ecografia transvaginal. Formação nodular na parede posterior e superior da bexiga.

Foram também efectuados: hemograma e bioquímica (sem alterações relevantes), doseamentos hormonais (prolactina, FSH, LH e progesterona) normais, função tireoideia normal, marcadores tumorais: CEA, CA 19.9 e alfa fetoproteína normais. O CA 125 estava aumentado (183.35 u/ml).

Procedeu-se a laparoscopia diagnóstica e cirúrgica. Confirmou-se o achado ecográfico de endometrioma anexial esquerdo, com éxerese do mesmo; não foram observadas outras lesões pélvicas compatíveis com endometriose.

Uma vez que a possibilidade de se tratar de uma lesão maligna da bexiga não podia ser negligenciada, foi efectuada cistoscopia, que revelou lesão vegetante sugestiva de endometriose vesical na parede posterior. Procedeu-se a ressecção transuretral da mesma com ansa monopolar.

### Achados patológicos

O exame histológico da lesão da bexiga mostrou tratar-se de retalhos da parede vesical com representações da mucosa e muscular própria onde se observavam lesões de endometriose e de endosalpingiose (mullerianose).

Observa-se envolvimento da mucosa e muscular própria por inúmeras glândulas endometriais de contorno estrelado (figura 3).

O epitélio transicional da bexiga é substituído em algumas áreas por epitélio proliferativo formando projecções intraluminais papilares constituídas por epitélio semelhante ao das glândulas endometriais. Este

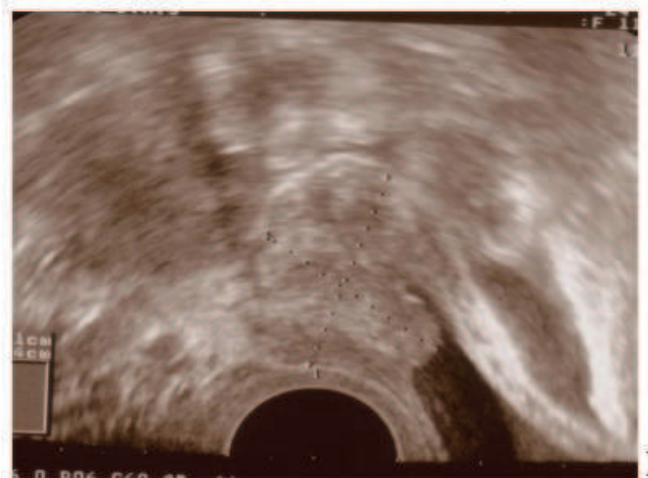
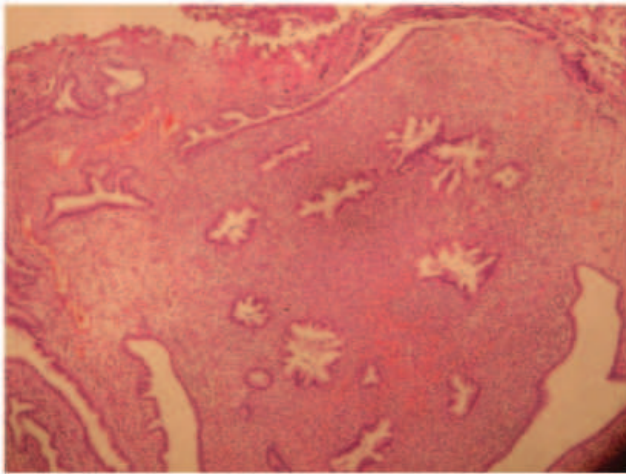
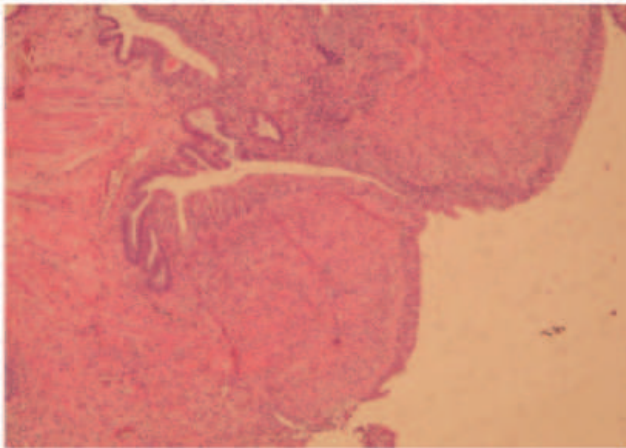


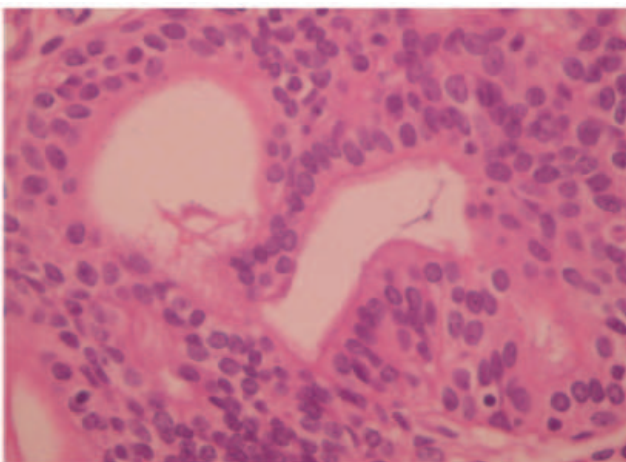
Figura 2. Ecografia transvaginal



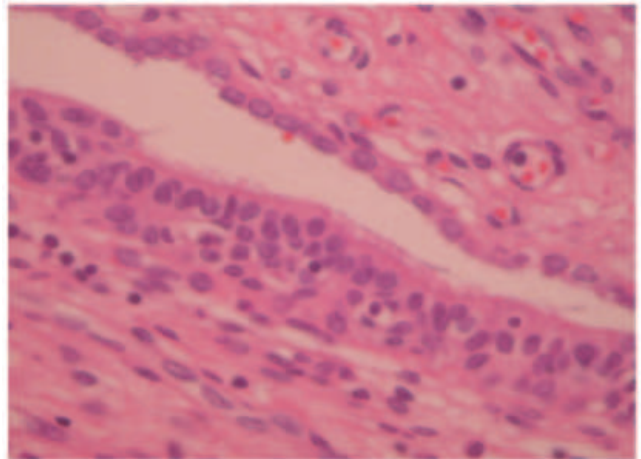
**Figura 3.** Glândulas endometriais de contorno estrelado, compatível com endometriose



**Figura 4.** Epitélio de transição vesical de superfície e cripta de glândula endometrial.



**Figura 5.** Epitélio tipo tubar ( cilíndrico ciliado) - endosalpingiose



**Figura 6.** Epitélio tipo tubar ( cilíndrico ciliado) - endosalpingiose

epitélio mulleriano está adjacente ao epitélio de transição vesical (figura 4).

Algumas glândulas e cistos são delimitados por células epiteliais cubóides, ciliadas, com aspecto semelhante ao epitélio da trompa de Falópio (endosalpingiose), (figuras 5 e 6).

## DISCUSSÃO

Cada uma das três proliferações benignas do epitélio glandular mulleriano (endometriose, endosalpingiose e endocervicose) podem ser encontradas na bexiga. O envolvimento por endometriose é o mais comum. Pelo contrário, a endocervicose, e em alguns casos, a associação de endosalpingiose a endometriose ou a endocervicose é mais raro.

Sampson, em 1925, foi o primeiro a usar o termo mullerianose, aplicado ao que hoje habitualmente designamos por adenomiose. O termo mullerianose foi usado por Batt e al., em 1989, correspondendo a uma lesão remanescente de tecido mulleriano (endometriose, endosalpingiose, endocervicose) confinado ao peritoneu pélvico posterior e de origem presumivelmente congénita, aceitando um componente histológico – endométrio – como diagnóstico de mullerianose.<sup>3,4</sup> Young and Clement, em 1996, redefiniram o conceito de mullerianose a lesões histológicas, em qualquer localização, contendo pelo menos dois dos epitélios glandulares mullerianos (endosalpingiose, endometriose, endocervicose) e preferencialmente os três. O conceito mais actual de mullerianose é sugerido por



Batt e al., numa publicação de 2007, que considera a mullerianose como a presença de coriostomas raros na maioria dos órgãos pélvicos e abdominais, com excepção do baço. Estes coriostomas mullerianos – quer contenham um, dois ou três dos componentes epiteliais podem ser diagnosticados quando se verificarem três condições: 1- ausência de endometriose pélvica; 2- ausência de comunicações directas entre o endocérvix, endométrio ou endosalpinge; 3- ausência de cirurgias anteriores nos órgãos pélvicos. Quando os coriostomas mullerianos são constituídos por dois ou três dos componentes tecidulares descritos constitui, de acordo com o já postulado por Young and Clement, diagnóstico definitivo de mullerianose.

Até há pouco tempo a única proliferação benigna do epitélio glandular mulleriano que parecia envolver a bexiga era a endometriose<sup>5-8</sup>. Em 1992, foram relatados 6 casos de endocervicose vesical, uma lesão mulleriana benigna caracterizada por glândulas endocervicais que em algumas circunstâncias podia ser confundida com adenocarcinoma<sup>9</sup>. A endocervicose é menos comum que a endometriose. Em contraste, a endosalpingiose que é tão ou mais comum que a endometriose não foi descrito como um achado proeminente encontrado na bexiga.

Na literatura consultada há referência a cerca de 5 casos de “mullerianose da bexiga tipo endosalpingiose”, nenhum deles com sintomatologia grave. Robert Young em 1996 documentou, pela primeira vez, três casos de endosalpingiose com componentes *minor* de endocervicose e endometriose<sup>1</sup>. Aparentemente a endosalpingiose está tipicamente associada com uma ou duas das outras lesões mullerianas. A endosalpingiose, ao contrário da endometriose é habitualmente assintomática. Em contraste com a endocervicose e a endometriose, a endosalpingiose raramente envolve o músculo liso. Outro caso de endosalpingiose foi documentado em Tokyo por Aray em 1999<sup>10</sup>. O caso mais recentemente documentado de mullerianose descreve a coexistência de achados típicos de mullerianose e cistite glandular com metaplasia intestinal focal<sup>11</sup>.

Estão descritos casos de endosalpingiose cutânea e peritoneal.

O diagnóstico diferencial da mullerianose é efectuado com diversas proliferações benignas da bexiga, nomeadamente a cistite glandular, cistite cística, adenoma

nefrogénico, bem como com o adenocarcinoma. As características arquitecturais e citológicas permitem a sua diferenciação. Em contraste com a proliferação das glândulas de muller, na cistite glandular não há envolvimento da muscular própria; os cílios não são característicos das células de cistite cística ou glandular. Nestas lesões são identificadas células de transição na periferia das glândulas, um achado ausente na mullerianose. O adenoma nefrogénico pode ser diferenciado da mullerianose pelo facto de não envolver a muscular própria, bem como pela ausência de cílios. A mullerianose deve ser acrescentada ao diagnóstico diferencial das lesões pseudoneoplásicas glandulares da bexiga.

O tratamento de primeira linha da mullerianose é cirúrgico. Um dos casos de endosalpingiose descrito por Robert Young foi tratado com terapêutica hormonal (agonista da GnRH), porque se pensava que a massa vesical representava endometriose, mas nenhuma alteração foi notada.

A mullerianose pode estar associada a dor pélvica crónica, infertilidade e dismenorrea com repercussões na qualidade de vida das mulheres. Este motivo é suficiente para que a mullerianose seja objecto de discussão e investigação futuras, no que diz respeito, ao diagnóstico, patogénese e tratamento.

## REFERÊNCIAS

1. Young RH, M.D., Clement PB. Mullerianosis of the Urinary Bladder. *Modern Pathology*. 1996; 9: 731-7.
2. Batt R.E. Smith RA, Buck GM, J.Yeh. Mullerianosis. *Histol Histopathology* 2007; 22: 1161-1166
3. Sampson JA. Heterotopic or misplaced endometrial tissue. *Am J Obstet Gynecol* 1925;10: 649.
4. Batt RE, Smith RA, Buck GM, Severino MF, Naples JD. Mullerianosis. *Prog Clin Biol Res* 1990; 323: 413.
5. Abes House BS, Abes House G: Endometriosis of the urinary tract. A review of literature and a report of four cases of vesical endometriosis. *J Intern Coll Surg* 1960; 34: 43.
6. Stanley KE Jr, Utz DC, Dockerty MB. Clinically significant endometriosis of the urinary tract. *Surg Gynecol Obstet* 1965; 120: 491.
7. Clement PB. Diseases of peritoneum. In: Blaustein's Pathology of the female genital tract, edite by Kurman RJ(4<sup>th</sup> Edition). New York, Springer – Verlag, 1994: 647
8. Clement PB. Pathology of endometriosis. *Path Annu* 1990; 25: 245.
9. Clement PB, Young RH. Endocervicosis of the urinary bladder. A report of six cases of a benign mullerian lesion that may mimic adenocarcinoma. *Am J Surg Pathol* 1992; 16: 533.
10. Y Aray, M Tsuzuky, Miki M. A case of submucosal endosalpingiosis in the urinary Blader. *Nippon Hinyokika Gakkai Zasshi*, 1999; 90: 802-5
11. Koren J, Jamecnik M. Mullerianosis of the urinary bladder: report of a case with suggested metaplastic origin. *Virchows Arch*. 2006 Aug;449(2):268-71.