

CONDILOMATOZĂ GIGANTĂ BUSCHKE-LÖWENSTEIN PERIANALĂ – prezentare de caz –

V. PĂTRAȘCU, LOREDANA ELENA TĂNASE, LAURA SIMONA IANOȘI,
CLAUDIA VALENTINA GEORGESCU, F. CALOTĂ*

Craiova

Rezumat

Condilomatoză gigantă Buschke - Löwenstein este o tumoră rară, infiltrantă și distructivă, cu creștere lentă, îmbrăcând în cursul evoluției aspect conopidiform. Interesează cu precădere bărbații și persoanele cu imunodepresie.

Tumora Buschke - Löwenstein reprezintă carcinomul verucos al regiunii genitale și perianale, fiind forma cea mai frecvent întâlnită a acestuia.

Autorii prezintă un bărbat în vârstă de 44 ani cu condilomatoză gigantă Buschke - Löwenstein al cărui debut în urmă cu 23 ani a fost prin leziuni tipice de condiloame acuminata, aspectul tumoral fiind consemnat după un istoric al bolii de 18 ani.

Tumora a fost extirpată chirurgical, ocazie cu care s-a evidențiat infiltrarea leziunii în fosa ischio-rectală pe o profunzime de 7-8 cm.

Având în vedere recidivele frecvent consemnate în literatura de specialitate, este necesară o atenție supraveghere locoregională până la constatarea vindecării bolnavului.

Cuvinte cheie: condilomatoza gigantă Buschke-Löwenstein; carcinom verucos.

Summary

The Buschke - Löwenstein giant condyloma is a rare disease, infiltrating and destructive, slow-growing, cauliflower-like. It is common at men and at persons with immunospression.

The Buschke - Löwenstein tumor represent the verrucous carcinoma, which affects the anogenital region.

The authors present a man of 44 years old with the Buschke - Löwenstein giant condyloma with the debut was with 23 years ago, with tipical lesions of condylomata acuminata and the tumoral aspect appeared with 18 years ago.

The tumor was treated with surgical excision and we observed a proffoundness of 7-8 cm in the ischio-rectale foses.

Because we releved in the specialty literary recurent disease we have follow the patient until we considered cured.

Keywords: Buschke - Löwenstein giant condyloma; verrucous carcinoma.

DermatoVenerol. (Buc.), 52: 77-82

Condilomatoza gigantă Buschke-Löwenstein este o tumoră rară, infiltrantă și distructivă, cu creștere lentă, îmbrăcând în cursul evoluției aspect conopidiform. Afectează în mod primar zona genitală sau perianală. Interesează cu precădere bărbații și persoanele cu imunodepresie.

Această tumoră a fost descrisă în 1896 de către Buschke și Löwenstein care au numit-o „condiloma acuminata carcinom-like“. În 1979

Mohs și Sahl propun includerea condilomatozei gigante Buschke - Löwenstein între entitățile clinice ale carcinomului verucos.

Prezentare de caz

Bărbat, 44 ani, căsătorit, heterosexual, provenind din mediul urban, de profesie muncitor. AHC și APP nesemnificative.

* U.M.F. Craiova.



Fig. 1

CVM: fumător, consumator de alcool în cantități moderate.

Istoric: Boala a debutat cu condiloame acuminat obișnuite în urmă cu 23 ani. De 5 ani leziunile au îmbrăcat aspect conopidiform, iar de 3 luni s-a produs ulcerarea suprafeței tumorale însoțită de sângerări repetate. Bolnavul nu a urmat niciun tratament până la actualul consult.

La examenul local se evidențiază o tumoră perianală vegetantă de aproximativ 12/8 cm, având suprafața anfractuoză, brăzdată de șanțuri adânci, ulcerată și sângerândă. La palpare se constată consistență dură intraumorală. Tumora este fixată prin infiltrarea profundă a țesuturilor subiacente. Peritumoral sunt prezente numeroase condiloame acuminat (Fig. 1).

Examenul clinic pe aparate și sisteme este în limite normale.

Serologia pentru infecția HIV este negativă.

Bilanțul de extensie: ecografia și examenul clinic nu evidențiază interesarea ganglionilor



Fig. 2

limfatici; radiografia de bazin nu evidențiază atingeri osoase subiacente.

Bolnavul a fost tratat în serviciul de chirurgie unde s-a practicat o incizie eliptică, circumscrind formațiunea tumorală perianală. În timpul exciziei, utilizând bisturiul electric s-a constatat extensia tumorii în profunzime, la nivelul fosei ischio-rectale, pe circa 7-8 cm. După extirpare s-a făcut hemostază cu fire transfixiante și meșaj hemostatic al cavității restante. În fig. 2 este prezentat cazul după o lună de la intervenția chirurgicală.

Examen histopatologic

Epidermul a prezentat papilomatoză marcată, hiperacantoză și hiperkeratoză parakeratozică (Fig. 3). Numeroase keratinocite prezentau aspect koilocitotic cu halou perinuclear și nucleu cu aspect neregulat al membranei nucleare (aspect de „stafidă”) (Fig. 4, 5, 6). Pe alocuri epidermul avea aspect de hiperplazie pseudoepitelio-

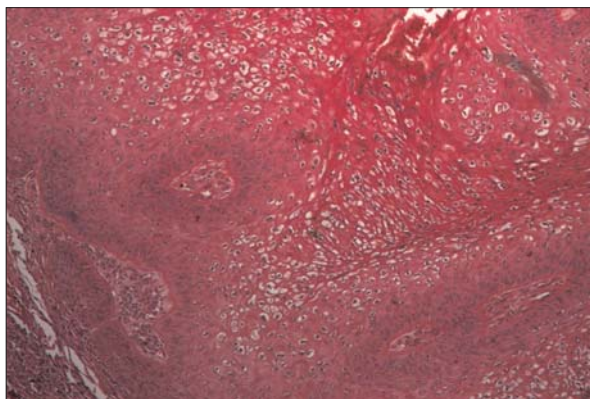


Fig. 3

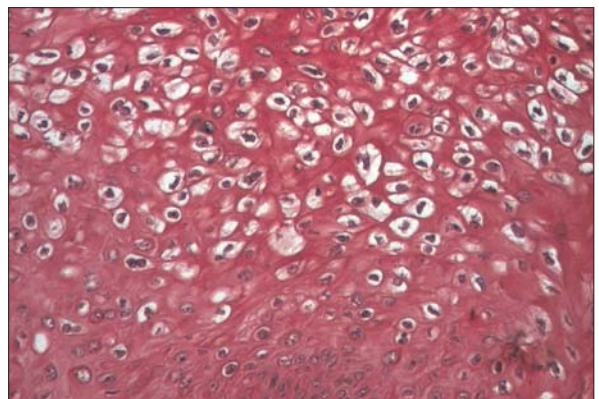


Fig. 4

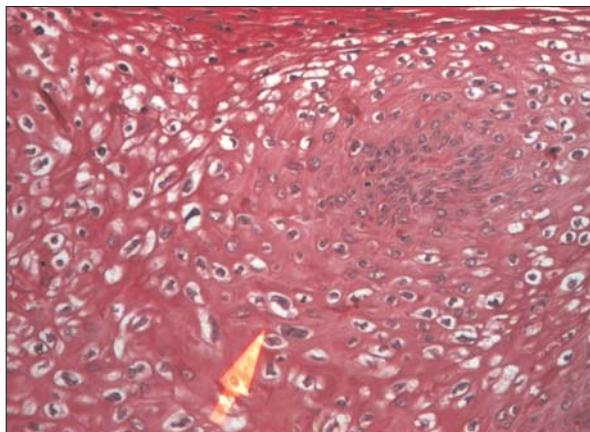


Fig. 5

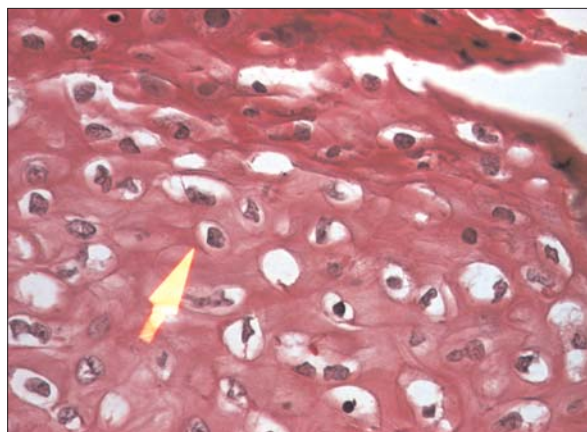


Fig. 6

matoasă, dar zonele respective nu erau zone de invazie francă a țesutului subiacent deoarece insulele celulare erau delimitate de un strat de celule bazale (Fig. 7, 8). În derm și hipoderm s-a observat un intens infiltrat inflamator cronic pe alocuri cu aspect de țesut de granulație.(Fig.9, 10)

Discuții

La ora actuală se consideră că tumora Buschke-Löwenstein reprezintă carcinomul verucos al regiunii genitale și perianale, fiind forma cea mai frecventă a acestuia (Dimitrescu și colab., 1997).

Carcinomul verucos este un carcinom spinocelular cu grad înalt de diferențiere, care poate interesa atât tegumentele cât și mucoasele. A fost descris pentru prima dată de către Ackerman (1948) la nivelul mucoasei bucale.

Patogenia carcinomului verucos nu este elucidată. Sunt evocați mai mulți factori (F. Martin și colab., 1995):

- fenomene inflamatorii cronice (eventual provocate sau întreținute de factori infecțioși): fistule de osteomieliță, ulcere, cicatrici (arsuri, degerături), necrobioza lipoidică.
- microtraumatisme repetate
- etiologia virală (HPV) deși nu s-au putut decela totdeauna HPV în tumoră la microscopia electronică.

Carcinomul verucos se caracterizează prin dezvoltare lentă și continuă, distrugând țesuturile subiacente. Atingerile osoase se întâlnesc la 10% din cazuri, iar metastazele ganglionare regionale la 5% din cazuri. Nicio metastază viscerală nu a

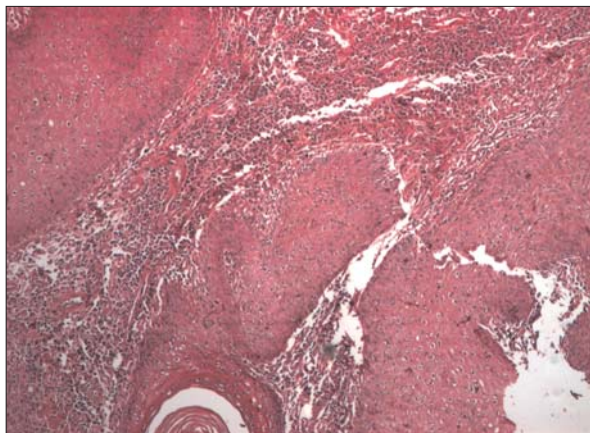


Fig. 7

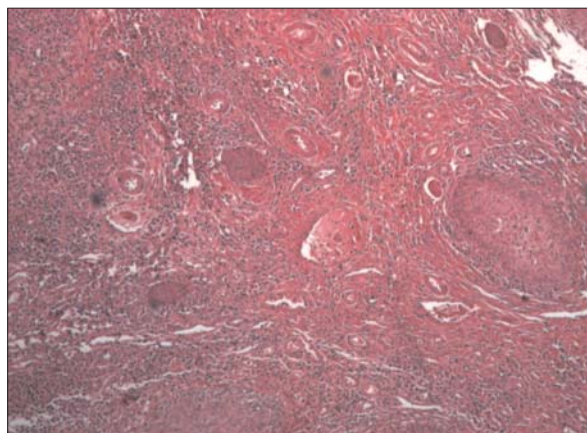


Fig. 8

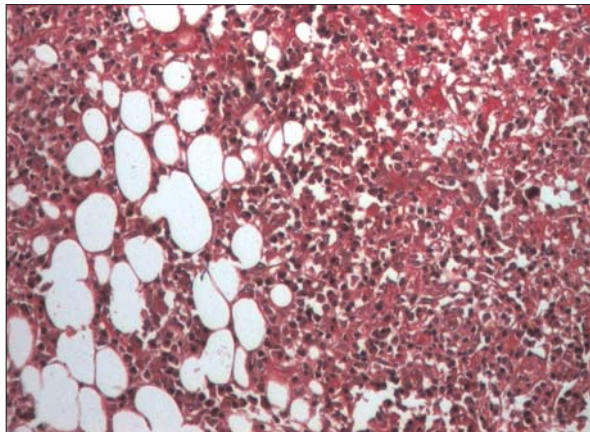


Fig. 9

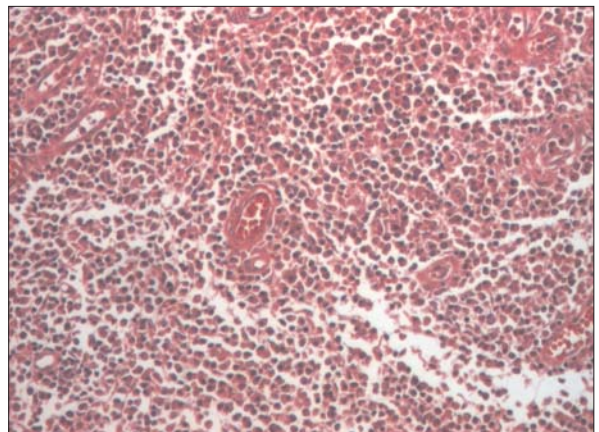


Fig. 10

fost consemnată cu excepția cazurilor de transformare anaplazică după radioterapie.

Se consideră că această tumoră are aspect macroscopic malign și aspect microscopic liniștitor (R. Tomb și colab., 2004). Totuși, diagnosticul histopatologic este foarte dificil și necesită una sau mai multe biopsii de talie mare (N. Ortonne, 2004). Aspectul este foarte apropiat de cel al unei hiperplazii epidermice pseudo-epiteliomatoase cu creste epidermice mari, plonjând în derm. Histologic se remarcă papilomatoză cu acantoză, cu displazie variabilă și fără depășirea membranei bazale.

În fine, diagnosticul de carcinom verucos presupune coroborarea clinicii, histopatologiei și comportamentului biologic al tumorii.

Carcinomul verucos cuprinde următoarele entități clinice:

- tumora Buschke-Löwenstein;
- papilomatoza floridă orală;
- epithelioma cuniculatum;
- papilomatosis cutis carcinoides.

Mai nou se disting forme cutanate și forme mucoase ale carcinomului verucos

Papilomatoza floridă orală (sin. carcinomul verucos Ackerman; carcinomul verucos panorall; hiperplazia verucoasă a mucoasei orale) a fost denumită astfel de Ruck și Fischer în 1960 și reprezintă 3% din carcinoamele bucale. Pare a fi mai frecvent la bărbați, iar vârsta medie a bolnavilor este de 60-70 ani.

Etiologia este incertă. S-au evidențiat HPV 2,3,6,11 în cancerul verucos oral și tipurile 16,18 în cancerul verucos faringian. Fumatul, mestecatul

tutunului igiena bucală precară și traumatismele mecanice prin proteze neadecvate sunt deasemenea incriminate. Ca factori favorizanți pentru apariția carcinomului verucos oral sunt citate mai multe afecțiuni cu interesarea de durată a mucoasei bucale: lichenul plan, leucoplazia, lupusul eritematos cronic, candidoza cronică.

Au fost descrise cazuri de carcinom verucos dezvoltat după 2-8 ani de la descoperirea lichenului plan cu leziuni bucale eritematoase sau erozive, dar întotdeauna asociate cu o componentă keratozică (S. Bosnic și colab. 2003).

Papilomatoza floridă orală se localizează mai frecvent pe mucoasa jugală, gingii, planșeu, și mai rar pe palat, limbă sau comisuri (Ghe Bucur, Diana Angela Opreș 2002). Apar formațiuni verucoase, albe cu diametrul 0,5-1 cm. care ulterior devin vegetante. Tumora invadează țesuturile în profunzime (mucoasă, mușchi, piele). Pot să apară adenopatii regionale care sunt de cele mai multe ori de tip inflamator și doar în mod excepțional metastatice.

Papilomatoza floridă orală nu are tendință la regresie spontană, recidivează adesea după tratament și în 10% din cazuri evoluează către carcinom spinocelular tipic, după o perioadă de latență de aproximativ 10 ani.

Epithelioma cuniculatum (sin carcinom verucos plantar). Această tumoră a fost descrisă de Aird și colaboratorii în 1954. Afectează mai frecvent bărbații (78-89% din cazuri) cu vârsta medie de 60 de ani. În etiologia bolii sunt incriminate H.P.V. 6și 11 dar și imunodepresia.

Epiteliomul cuniculatum este localizat preponderent în treimea anterioară a unei plante. Debutază ca o tumoră exofitică, burjonată cu suprafața verucoasă, uneori ulcerată sau are aspectul unei veruci plantare gigante. Ulterior crește în dimensiuni ajungând la un diametru de 7-15 cm, este molatică, ulcerată, și cu secreție urât mirositoare. În acest stadiu tumora infiltrază în profunzime țesuturile având o dezvoltare preponderent endofitică, (Al.Dimitrescu, P. Trifu 1992). În profunzime se formează sinusuri asemănătoare canalelor săpate de iepurele de câmp, aspect care a sugerat denumirea de epithelioma cuniculatum. Sunt mase tumorale centrate deseori de spații pseudochistice umplute cu material cheratozic. La apăsare se elimină un material alb gălbui păstos cu miros neplăcut.

Papilomatosis cutis carcinoides

Termenul de față este azi utilizat pentru carcinomul verucos cu altă localizare decât cele plantare, cavitatea bucală, zona genitală și perianală. În 1931 Gottron a folosit termenul de „papilomatosis cutis“ pentru leziunile papilomatoase și conopidiforme de la nivelul coapselor, iar paternitatea termenului complet (papilomatosis cutis carcinoides) îi aparține lui Mischer (1950), acesta considerând astfel de leziuni ca fiind un cancer scuamos.

Papilomatosis cutis carcinoides reprezintă forma cea mai rară a carcinomului verucos, deși poate avea localizare ubicuitară: obraji, nas, urechi, trunchi, coapse, gambe, fese, scalp, mâini, etc.

Tumora este exofitică, conopidiformă, cu suprafața ulcerată și mamelonată mimând un carcinom spinocelular keratozic.

Sunt incriminate în etiopatogenia acestui carcinom verucos în primul rând procesele inflamatorii cronice, tumora dezvoltându-se pe fistule de osteomieliță, ulcere cronice (venos, de decubit, post traumatic) și pe cicatrici de lupus sau pe cicatricea bontului de amputație.

Condilomatoza gigantă Buschke-Löwenstein

Reprezintă forma cea mai frecventă a carcinomului verucos.

Condilomatoza Buschke-Löwenstein are ca localizare de elecție glandul dar poate interesa și partea mucoasă a prepuțului. Reprezintă 5 până la 24% din cancerele peniene și afectează mai frecvent bărbații de 30-50 ani. Mult mai rar

condilomatoza gigantă Buschke - Löwenstein este localizată la nivelul vulvei, vaginului, colului uterin la femei (apare în jurul vârstei de 60 ani), la nivelul scrotului la bărbați și poate interesa regiunea perianală la ambele sexe.

În etiologie sunt incriminate H.P.V. 6 și 11 cărora li se pot asocia și tipurile oncogene, 16,18,31,33. Contribuie, cu cotă de participare diferite, igiena precară, iritațiile cronice, promiscuitatea. În apariția și evoluția tumorii un rol deosebit îl are statusul imun al pacientului.

La bolnavul nostru condilomatoza gigantă era localizată perianal. Debutul a fost caracteristic prin leziuni papilomatoase asemenea condilomelor acuminate, îmbrăcând după 18 ani aspect tumoral conopidiform.

În pofida aspectului histopatologic benign condilomatoza gigantă Buschke - Löwenstein prezintă malignitate locală, distrugând țesuturile adiacente. La bolnavul nostru tumora s-a infiltrat în fosa ischiorectală pe circa 7-8 cm profunzime, dar din fericire nu s-a ajuns la stenoza anală sau stricturi rectale, în pofida evoluției de durată. În localizarea genitală la femeie tumora Buschke - Löwenstein poate infiltra organele pelvine.

În cazul prezentat de noi principalele probleme de diagnostic diferențial au fost diferențierea de o tuberculoză verucoasă (diagnostic infirmat de examenul histopatologic) și cu carcinom spinocelular tipic. Istoricul bolii, aspectul histopatologic și mai ales absența metastazelor au exclus acest ultim diagnostic.

Tratamentul de elecție pentru carcinomul verucos este cel chirurgical. Se efectuează excizii radicală clasică sau se apelează la chirurgia Mohs. Această tehnică este preferată în epithelioma cuniculatum, permițând ablația totală a tumorii.

Crioterapia sau rezecția în bloc cu laser CO₂ sunt alte metode terapeutice.

Rezultate satisfăcătoare sunt citate după administrarea intravenoasă de bleomicină în papilomatoza floridă orală (Ghe. Bucur, Diana Angela Oprea 2002) și, de asemenea, prin asociere de retinoizi (Roaccutane 10 mg/zi) cu Metotrexat (10 mg/săptămână) într-un caz de carcinom verucos dezvoltat pe lichen bucal (R. Tomb și colab. 2003).

Radioterapia este considerată de foarte mulți practicieni ca fiind contraindicată în managementul carcinomului verucos datorită riscului de transformare anaplastică.

În studiile Perez și colab. (citate de Al. Dimitrescu și colab. 1997) se evidențiază faptul că după radioterapie în 10,7% din cazuri se înregistrează transformarea anaplazică. Totuși în articole recente autorii fac referire la diverse asocieri terapeutice în care includ și radioterapia. Astfel, la un bolnav cu carcinom spinocelular apărut pe tumora Buschke - Lōwenstein, autorii (Chao M.W., Gibbs P. 2005) afirmă controlul locoregional al bolii prin chimioradioterapie, în timp ce într-un alt articol (Tytherleigh M. G. și colab., 2006) sunt prezentate două cazuri cu tumoră Buschke-Lōwenstein extirpate după prealabilă chimio și radioterapie. Autorii concluzionează că chimio-radioterapia poate fi benefică în managementul acestui tip de carcinom verucos.

Ambriz-Gonzalez G. și colab. (2005) prezintă cazul unei fetețe de 12 ani cu tumoră Buschke - Lōwenstein perianală la care s-au obținut rezultate excelente prin excizie chirurgicală urmată după 6 săptămâni de administrarea de 5-fluorouracil pe o perioadă de o lună și jumătate.

Indiferent de mijloacele terapeutice utilizate, există consens în ceea ce privește prioritatea efectuării exciziei chirurgicale. Din nefericire, având în vedere mărimea tumorii, de multe ori este necesară, după excizia radicală, reconstrucția cu grefă (De Thono G.și colab. 2006). După tratament este obligatorie urmărirea pacienților datorită recurențelor frecvente (Renzi A. și colab. 2006; Levy A., Lebbe C. 2006).

În ceea ce privește carcinomul verucos cu localizare perianală rata recurențelor este de 66% (Mistrangelo M. și colab. 2005) motiv care ne determină la o atență supraveghere a cazului nostru tratat chirurgical.

Concluzii

Cazul prezentat de noi reprezintă o formă rară de condilomatoză gigantă Buschke-Lōwenstein cu localizare perianală, cu evoluție lentă dar distructivă locală.

Având în vedere recidivele frecvente ale carcinomului verucos, este necesară o supraveghere loco-regională trimestrială până la constatarea vindecării bolnavului.

Intrat în redacție: 18.6.2007

Bibliografie

1. Al. Dimitrescu, Al. Oanță, Oana Coman, Iuliana Niculescu - Carcinom verucos. *Rev. Medicină modernă*, nr. 9/1997:450-3.
2. F. Martin, S. Dalac, D. Lambert - Le carcinome verruqueux situation nosologique, a propos de quatre cas. *Rev. Ann. Dermatol. Venereol* 6-7/1995: 399-403.
3. R. Tomb, H. El-Hajj, E. Nehme, A. Haddad - Carcinome verruqueux de la langue survenu sur des lesions de lichen plan. *Rev. Ann. Dermatol. Venereol* 1/2003: 55-7.
4. N. Ortonne - Histopathologie cutanee carcinomes epidermoides (spinocellulaires) *Rev. Ann. Dermatol. Venereol* 6-7/2003: 667-9.
5. S. Boisnic, A. Thomas et col. - Carcinome verruqueux et lichen plan bucal. Association ou coincidence? *Rev. Ann. Dermatol. Venereol* 12/2003: 1196.
6. Gh. Bucur, Diana Angela Opreș - Boli Dermato-venerice, Enciclopedie Ed. Medicală Națională, București, 2002: 160-1.
7. Al. Dimitrescu, Paul Trifu -Precancere și cancere cutanate vol. I Ed. Medicală, București, 1992:51-7
8. Chao M.W., Gibbs P. - Squamous cell carcinoma arising in a giant condyloma acuminatum (Buschke - Lowenstein tumour) *Asian J Surg.*,2005 Jul; 28(3):238-40.
9. Tytherleigh M.G., Birtle AJ, Cohen CE, Glynne-Jones R, Livingstone J, Gilbert J - Combined surgery and chemoradiation as a treatment for the Buschke - Lowenstein tumour *Surgeon*, 2006 Dec; 4(6): 378-83.
10. Ambiz-Gonzalez G., Escobedo-Zavala LC, Carrillo de la Mora and col.- Buschke - Lowenstein tumor in childhood: a case report *J Pediatr Surg.* 2005 Sep; 40(9):e25-7.
11. De Toma G, Cavallaro G, Bitonti A, Polistena A, Onesti MG, Scuderi N - Surgical management of perineal giant condyloma acuminatum (Buschke - Lowenstein tumour). Report of three cases *Eur Surg Res.* 2006; 38(4): 418-22.
12. Renzi A, Giordano P, Renzi G, Landolfi V, Del Genio A, Weiss EG - Buschke - Lowenstein tumor successful treatment by surgical excision alone: a case report *Surg Innov.* 2006 Mar; 13(1): 69-72.
13. Levy A, Lebbe C - Buschke - Lowenstein tumour: diagnosis and treatment *Ann Urol (Paris).* 2006 Jun; 40(3): 175-8.
14. Mistrangelo M, Mobiglia A, Cassoni P, Castellano I, Maass J, Martina MC, Bello M, Mussa A - Verrucous carcinoma of the anus or Buschke - Lowenstein tumor of the anus: staging and treatment. Report of 3 cases *Suppl Tumori.* 2005 May-Jun; 4(3):S29-30