

TERATOMA QUÍSTICO MADURO CON FISTULA RECTAL: REPORTE DE UN CASO

MATURE CYSTIC TERATOMA WITH RECTAL FISTULA: A CASE REPORT

César Uceda-Martos^{1a}, Víctor Contreras-Quincho^{1a}, Harry Manrique-Urteaga^{2b}, Javier Nolasco-Torres^{3c}.

RESUMEN

El teratoma quístico maduro denominado también quiste dermoide es un tumor benigno de células germinales, que puede presentarse en tejido extragonadal con baja frecuencia, con transformación maligna en menos del 2%. La ruptura espontánea del quiste es extremadamente rara (menos del 1%). El quiste puede romperse en la cavidad peritoneal o rara vez en un órgano abdominal hueco como el recto, caso presentado en el estudio. Se reporta el caso de una mujer de 38 años con dolor abdominal, deposiciones con pus y pelos, diagnosticándole teratoma quístico maduro fistulizado a recto, se realizó tumorectomía más colostomía en asa sigmoidea. El diagnóstico final de patología fue teratoma quístico maduro. Presentó buena evolución y fue dada de alta a 6 días de la cirugía. Se hace una revisión actualizada de esta patología infrecuente y con buen pronóstico.

Palabras clave: teratoma quístico maduro, dermoid cyst, fistula rectal (Fuente: DeCS-BIREME)

ABSTRACT

The mature cystic teratoma also called dermoid cyst is a benign germ cell tumor, which can present in extragonadal tissue with low frequency, with malignant transformation in less than 2%. Spontaneous rupture of the cyst is extremely rare (less than 1%). The cyst may rupture in the peritoneal cavity or rarely in a hollow abdominal organ such as the rectum, a case presented in the study. We report the case of a 38-year-old woman with abdominal pain, defecation with pus and hairs, diagnosing mature cystic teratoma fistulized to the rectum, and a lumpectomy plus sigmoid loop colostomy. The final diagnosis of pathology was mature cystic teratoma. It presented good evolution and was discharged to 6 days of the surgery. An updated review of this uncommon condition and with a good prognosis is done.

Key words: mature cystic teratoma, quiste dermoide, rectal fistula (Source: MeSH NLM)

1. Servicio de Cirugía General. Hospital II EsSalud. Cajamarca, Perú.
2. Servicio de Diagnóstico por Imágenes. Hospital II EsSalud. Cajamarca, Perú.
3. Servicio de Anatomía Patología. Hospital II EsSalud. Cajamarca, Perú.
 - a. Médico especialista en Cirugía General
 - b. Médico especialista en Radiología
 - c. Médico especialista en Anatomía Patológica

Recibido: 11/10/2016 Aprobado: 10/12/2016

CORRESPONDENCIA:

César Uceda Martos

Email: Cesarmael@hotmail.com

INTRODUCCION.

Los tumores de células germinales constituyen casi el 20% de los tumores de ovario y de ellos un 95% son benignos, siendo el tipo más frecuente el teratoma maduro benigno o también denominado quiste dermoide.⁽¹⁾

Aproximadamente el 80% se presentan en mujeres en edad fértil. Se originan a partir de células embrionarias pluripotenciales presentes habitualmente en ovario, testículo, mediastino, retroperitoneo y región sacrocóxigea.^(1,11)

El teratoma quístico benigno con relativa frecuencia es un tumor bilateral (del 7 al 25% según los autores) y se caracteriza por una cápsula gruesa, bien formada, revestida por epitelio plano estratificado. Bajo este se pueden encontrar una variedad de apéndices cutáneos que incluyen glándulas sudoríparas, apocrinas y sebáceas. La cavidad se llena con el detritus de éste y sus anexos, que es de color amarillo pálido, grasoso, espeso y suele contener pelo. Otros tejidos que se pueden encontrar son dientes, cartílago, plexos coroideos, falanges, tejido nervioso y en ocasiones tejido tiroideo (struma ovarii) con potencial tiorotóxico o de degeneración maligna tiroidea.⁽²⁾

La transformación maligna del teratoma quístico maduro es una complicación poco frecuente, que ocurre en sólo el 1-2% de los casos con células escamosas.

El carcinoma es el tipo más común (80-90%) seguido de adenocarcinoma, carcinoide, sarcoma.^(3,7)

La mayor parte de los quistes dermoides son asintomáticos y la forma más frecuente de presentación son el dolor abdominal (48%) y hemorragia uterina anormal o concomitante (15%) o aumento del volumen abdominal (15%). La rotura de un quiste dermoide es rara, entre el 1-1,2% y constituye una urgencia quirúrgica.^(3,4)

En las series descritas en la bibliografía se estima que entre un 1-1,9% de los teratomas pueden romperse, lo que puede ocurrir hacia el espacio peritoneal, que es lo más frecuente, o hacia una víscera hueca, como vagina, vejiga urinaria, intestino o recto.⁽⁵⁾

Los casos de rotura intraperitoneal se pueden dividir en dos grupos. En el primero, la rotura ocurre de forma repentina, produciendo un dolor abdominal agudo; en el segundo, la rotura consiste en una pequeña fuga con mínima sintomatología y el desarrollo de una peritonitis granulomatosa por reacción a cuerpo extraño.⁽⁶⁾

La ecografía constituye el modelo diagnóstico de elección y la combinación de ecografía con radiografía simple de abdomen proporciona un diagnóstico más exacto en la mayoría de los casos, siendo la resonancia magnética o la TAC el que aporte el diagnóstico diferencial.⁽⁸⁾

El tratamiento es quirúrgico, siendo posible la mayor parte de las veces una resección del mismo, respetando el resto del ovario.⁽⁹⁾

El interés del caso que se presenta se basa en la fistulización del quiste hacia el recto, descrita en muy escasas ocasiones en la literatura.

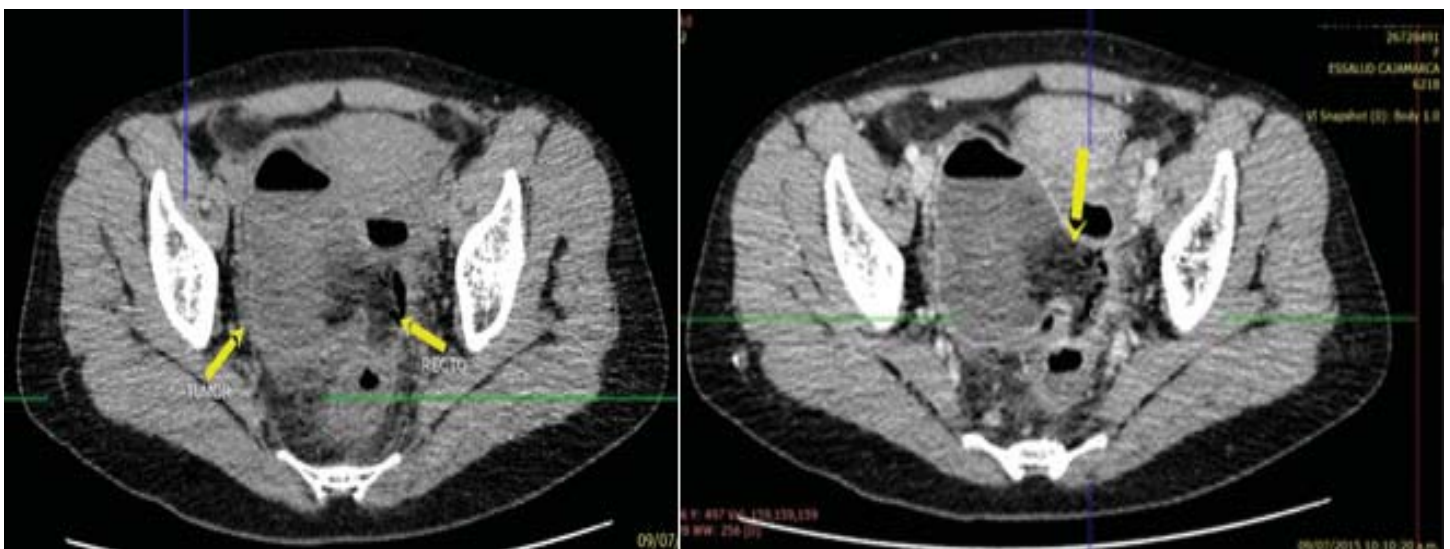
REPORTE DE CASO

Paciente mujer de 38 años, natural de Cajamarca, Perú, con antecedentes de apendicectomía convencional hace 5 años, menarquia a los 12 años. G2P1011, método anticonceptivo ampolla mensual. Ingresó al hospital con 3 semanas de enfermedad, caracterizada por dolor abdominal bajo tipo cólico, que aumentó de intensidad progresivamente, sensación de alza térmica, escalofríos, dolor perianal y deposiciones líquidas purulentas los últimos días. En la exploración física se palpó masa en hipogastrio de 10 cm de diámetro. Se realizó colonoscopia encontrando a 12 cm de línea pectínea orificio fistuloso cubierto por pelos con salida de pus de olor fétido. La tomografía axial computarizada (TAC) abdominal en reconstrucción 3D sagital y coronal mostró tumoración pélvica con densidad de partes blandas y densidad grasa en su interior con burbujas aéreas, con área que se proyecta al recto en relación a fistula (Figuras N° 1 y 2). Los exámenes auxiliares fueron: Leucocitos 7000/ ml; abastionados 0%, hemoglobina 11.4 gr/dl; plaquetas 267 000 mil/mm³; glucosa 70 gr/dl, creatinina 0,93 gr/dl.

Figura 1. TC en reconstrucción 3D sagital y coronal muestra tumoración pélvica (T) con densidad de partes blandas y densidad grasa, en su interior burbujas aéreas, con área que se proyecta al recto en relación a fístula (corte coronal).

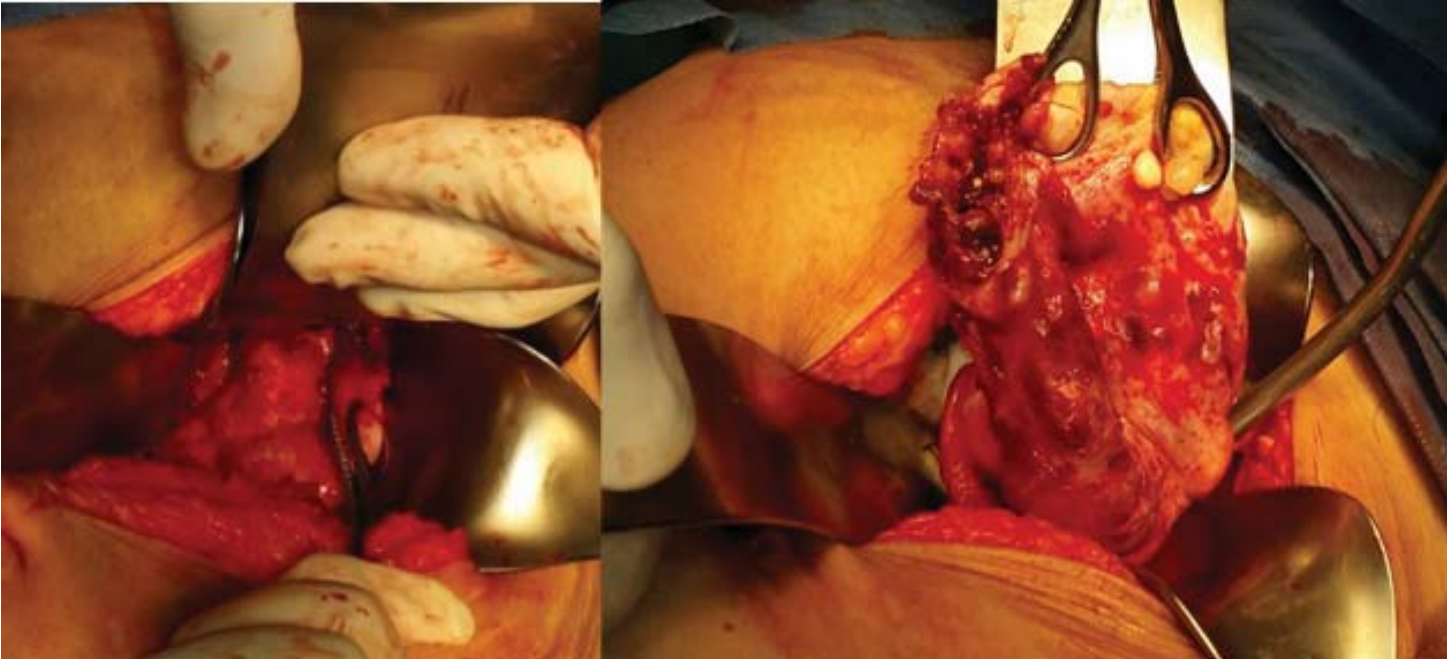


Figura 2. TC en cortes axiales con contraste endovenoso muestra: Tumoración pélvica (entre flechas) con densidad de partes blandas, densidad grasa en su interior y burbujas aéreas, además se aprecia área que se proyecta al recto (flecha grande) en relación a fístula.



Se realizó laparoscopia diagnóstica encontrando tumoración dependiente de ovario izquierdo, firmemente adherido a cara anterior de recto sigmoides, abscedada (Figura 3A). Se convirtió mediante incisión infraumbilical, realizando tumorectomía + anexectomía izquierda (Figura 3B), colocación de dren laminar en fondo de Saco de Douglas y colostomía en asa sigmoidea.

Figura 3. A. Tumor firmemente adherido a la pared anterior del recto. B. Excisión de tumor de pared anterior del recto.



El resultado de patología fue Teratoma quístico maduro (Figura 4 y 5) abscedado y fistulizado a recto, encontrando tejido epidérmico, glándulas sudoríparas, grasa y pelos. (Figura 6 y 7)

Figura 4. Imagen macroscópica: Quiste cerrado, con superficie irregular, parcialmente hemorrágica y supurativa.



Figura 5. Imagen macroscópica: Quiste abierto, con pared fibrosa de grosor variable y superficie interna con múltiples cabellos.



Figura 6. Imagen microscópica: Capa epidérmica con queratina, glándulas sebáceas y dermis con infiltrado inflamatorio mixto.

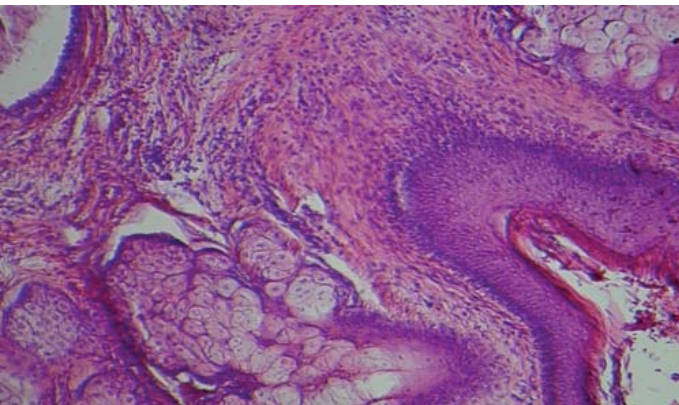
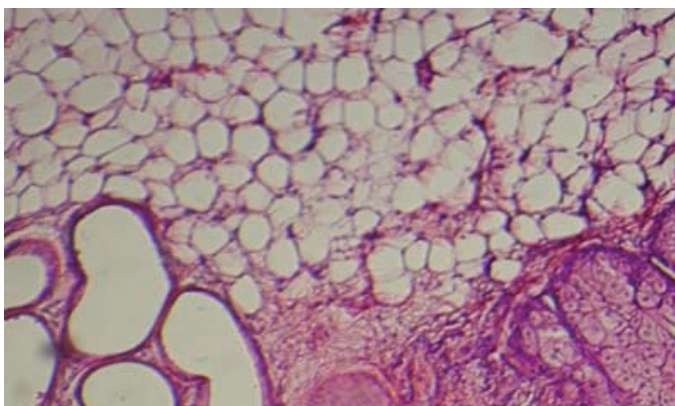


Figura 7. Imagen microscópica: Tejido adiposo, con infiltrado inflamatorio mixto, glándulas sebáceas y sudoríparas.



Paciente presentó buena evolución, y fue dada de alta a los 6 días del internamiento, citándola en 3 meses para cierre de colostomía.

DISCUSION

La palabra “teratoma” se deriva de obra griega “teraton” que significa monstruo. Fue utilizado inicialmente por Virchow en 1863. El término “quiste dermoide” fue acuñado por Leblanc en 1831. Ambos se utilizan indistintamente. Derivados de células totipotenciales, estos tumores son la línea media o paraxial. Después de teratomas sacrococcígeos (57%), las gónadas (29%) son el segundo sitio más común. El teratoma quístico maduro representa 10-20% de todas las neoplasias de ovario, se producen principalmente en pacientes menores de 20 años de edad. ⁽¹⁰⁾

Histológicamente, muestran una mezcla variable de elementos de uno o más de las de tres capas de células germinales: ectodermo (piel, cerebro) mesodermo (músculo, grasa, dientes, huesos y cartílagos) y endodérmico (epitelio gastrointestinal mucinoso o ciliado, bronquial, tejido tiroideo). Patológicamente, el teratoma se clasifica en tres grupos: Maduro (quísticas, sólidas, son benignas), Inmaduro (maligno) y Monodérmico (tumores carcinoides, tumores neuronales) ⁽¹²⁾

Los teratomas más comúnmente surgen en las gónadas, pero también se han encontrado en el mediastino anterior, retroperitoneo y tracto gastrointestinal. ⁽¹²⁾

El origen del teratoma no está definido, por lo que existen varias teorías. La teoría más popular fue formulada por Willis en 1951, quien postuló que el teratoma crece desde células totipotenciales que escapan de la influencia del organizador primario durante el desarrollo embriológico. Sugirió que la alteración ocurre en el área de la banda primitiva y el proceso cefálico, debido a que un gran número de teratomas ocurre en las regiones mediales y paramediales del cuerpo; por esta hipotética razón, los teratomas han sido encontrados en diferentes sitios del cuerpo humano: sacrococix, mediastino, ovarios, testículo, hígado, estómago y trompas de Falopio. ⁽⁹⁾

Otra hipótesis de la partenogénesis (una forma de reproducción basada en el desarrollo de células sexuales femeninas no fecundadas). Esta teoría se basa en que numerosos teratomas ocurren en la infancia, cuando las células germinales aún son inmaduras. ⁽²⁾

El origen del teratoma maduro extra gonadal es desconocido, aunque se cree que durante la embriogénesis las células germinales migran desde el endodermo del saco vitelino hacia las gónadas a través del mesenterio dorsal del intestino posterior, y restos de células totipotenciales podrían teóricamente llegar a quedar aisladas en esta vía. ⁽⁷⁾

El teratoma del tracto gastrointestinal es también una entidad rara. La baja incidencia de teratomas en el tracto gastrointestinal radica en la ausencia de células germinales a este nivel, por lo cual se plantea la hipótesis de la presencia aberrante de estas células fetales en el recto por adyacencia a otras estructuras como gónadas, glándulas suprarrenales y tracto urinario; sin embargo, esta hipótesis de manera aislada no explica su origen, dado el rango de edad de aparición (8 a 80 años), por lo cual deben existir mecanismos desconocidos que influyen en su génesis. ⁽⁷⁾

El teratoma primario de recto una entidad extremadamente rara, se ha sugerido que crece de células germinales aberrantes del tracto digestivo

embrionario. Como las glándulas suprarrenales, tracto urinario, gónadas y el recto son estructuras contiguas, las células germinales tienen la oportunidad de entrar aberrantemente al recto y crear un teratoma rectal. ⁽¹²⁾

La ruptura espontánea del quiste es extremadamente rara porque de su gruesa pared y se informa en menos del 1% de los casos. El quiste puede romperse en la cavidad peritoneal o rara vez en un órgano abdominal hueco. Los sitios reportados son la vejiga urinaria, intestino delgado, colon sigmoidees, recto y vagina. Los teratomas pueden invadir la pared del recto y puede presentarse como un pólipo hemorrágico rectal o se puede presentar como un cambio en los hábitos intestinales debido a la compresión del recto. Se pueden presentar de esta manera por adhesión del tumor a una estructura adyacente resultante en la isquemia y necrosis de la pared del quiste, infección del quiste, resultado de un trauma durante el parto, o un cambio maligno en el quiste dermoide. ⁽³⁾

Para el diagnóstico son necesarios los estudios de imágenes. La radiografía simple es útil para demostrar calcificaciones, que aunque son sugestivas no son exclusivas de estos tumores. En la Ecografía se presentan como una masa quística con un tubérculo marcadamente ecogénico en su luz, o bien como una masa ecogénica por el contenido sebáceo, o como múltiples bandas ecogénicas finas (pelo en la cavidad del quiste). El mayor problema de la ecografía es que es operador dependiente. ⁽⁶⁾

La Tomografía Computarizada es muy sensible para la detección de la grasa intratumoral, así como para las calcificaciones, habitualmente localizadas en la pared. En ocasiones se han descrito bilateralidad. ^(3,8) En la Resonancia Magnética, el componente sebáceo de los quistes der-

moides tiene una intensidad de señal muy alta en imágenes potenciadas en T1, similares a la grasa retroperitoneal. La intensidad de la señal del componente sebáceo en T2 es variable, por lo general que se aproxima de grasa. Esta combinación de las diferentes intensidades de señal en T1 y T2 no es específico de grasa y debe distinguirse de la hemorragia intraquística, que puede causar disminución de la señal en T1 y T2 del líquido del quiste. Las imágenes en T1 y T2 pueden simular lesiones hemorrágicas como los endometriomas. ⁽⁸⁾ En el presente caso se identificó el ovario izquierdo envuelto por el tumor firmemente adherido a la pared anterior del recto (Figura 3) y en la luz rectal a 12 cm de línea pectínea un orificio fistuloso por el que salía pus y pelos, el cual tenía continuidad con el ovario. Estos hallazgos fueron confirmados por la Tomografía y el estudio histopatológico (Figura 1 y 5).

El tratamiento de elección en teratomas quísticos maduros que fistulizan a recto es la escisión tumoral completa, estando descritos diferentes procedimientos quirúrgicos que incluyen resección segmentaria del recto con anastomosis primaria, resección anterior baja, resección amplia de la pared rectal y elaboración de colostomía, resección amplia y cierre primario. ^(1,12)

Concluyendo, del análisis de la revisión bibliográfica actual, incluido nuestro caso, podemos inferir que el teratoma quístico maduro con fistula hacia recto es una patología rara, pero de buen pronóstico. Los síntomas no son específicos, por lo que un diagnóstico clínico preoperatorio preciso es difícil, siendo útil las pruebas de imágenes. La cirugía es el tratamiento indicado.

FINANCIAMIENTO: autofinanciado

CONFLICTOS DE INTERÉS: los autores niegan conflictos de interés

Referencias Bibliográficas:

1. Kocak M, Dilbaz B, Ozturk N, Dede S, Altay M, Dilbaz S, et al. Laparoscopic management of ovarian dermoid cysts: a review of 47 cases. *Ann Saudi Med* 2004;24 (5):357-60.
2. Kumar B, Kumar M, Sen R, Anchal N. Mature solid teratoma of the rectum: report of a case. *Surg Today* 2008;38:1133-1136..
3. Sebastià C, Sarrias M, Sánchez E, Quiroga S, Boyé R. Rotura de teratoma quístico maduro de ovario: hallazgos por tomografía computarizada. *Radiología* 2004;46(1):34-37
4. Von-Walter AR, Nelken RS. Benign cystic ovarian teratoma with a fistula into the small and large bowel. *Obstet Gynecol.* 2012;119 (Part 2):434-436.
5. Basu S, Kumar M. Ovarian dermoid eroding into rectum an masquerading as recurrent rectal teratoma. *Open Access Surgery* 2010;3 5-7
6. Cebesoy FB, Baskonus I, Mete A, Kutlar I, Aybasti N. Benign ovarian dermoid cyst complicated with rectal fistula formation: an unusual case. *Arch Gynecol Obstet.* 2009;279: 179-181.

7. Okada S, Ohaki Y, Inoue K, Nakajo H, Kawamata H, Kumazaki T. A case of dermoid cyst of the ovary with malignant transformation complicated with small intestinal fistula formation. *Radiat Med.* 2005;23:443-446.
8. Hernández M, Nieves G, Hernandez, Pastor J. Teratoma quístico maduro ovárico: características de imagen y diagnóstico de sus complicaciones. Congreso SERAM 2012. Doi link: <http://dx.doi.org/10.1594/seram2012/S-0855>
9. Arias W, Ramirez L, Lugo P, Salgado N. Teratoma sólido maduro de ovario con protrusión intrarrectal. Informe de un caso. *Cir Ciruj* 2009;77:403-406.
10. Park H, Park S, Kim W, Park J. Ovarian teratoma presenting as a pedunculated colonic polyp. *Endoscopy* 2006;38:E36.
11. Târcoveanu E, Vasilescu A, Georgescu S, Dănilă N, Bradea C, Lupascu C, et al. Laparoscopic approach to ovarian dermoid cysts. *Chirurgia (Bucur).* 2012;107(4):461.
12. Pradhan P, Thapa M. Dermoid Cyst and its Bizarre Presentation. *J Nepal Med Assoc* 2014;52(194):822-9

© Los autores. Este artículo es publicado por la Revista Hispanoamericana de Ciencias de la Salud. Este es un artículo de acceso abierto, distribuido bajo los términos de la Licencia Creative Commons Atribución-CompartirIgual 4.0 Internacional. (<http://creativecommons.org/licenses/by-sa/4.0/>), que permite el uso no comercial, distribución y reproducción en cualquier medio, siempre que la obra original sea debidamente citada.