

Teratoma sólido maduro de ovario con protrusión intrarrectal. Informe de un caso

Williams Arias-Garzón,* Lorenzo Ramírez-Durini,* Paulina Lugo-Soria,** Napoleón Salgado-Macias**

Resumen

Introducción: El teratoma primario de recto es una entidad extremadamente rara; se ha sugerido que deriva de células germinales aberrantes del tracto digestivo embrionario. Una complicación inusitada es que el tumor ovárico erosione la pared rectal y permita la formación de una fístula para así alojarse en el interior del recto.

Caso clínico: Mujer de 54 años de edad con sangrado transanal. Por endoscopia se observó tumor cubierto de pelos en su superficie, localizado a 15 cm del margen anal. Una tomografía computarizada identificó la localización exacta y la presencia de tejido óseo en su interior. Mediante laparotomía se apreció el ovario izquierdo fusionado a la cara anterior del recto, de donde se originaba un tumor de 5 × 4 cm que protruía hacia su luz. Se realizó ooforectomía izquierda y mediante sección peritumoral de la pared intestinal se extrajo el tumor del interior del recto y se cerró el defecto con suturas simples. El estudio histológico demostró conglomeración de tejidos correspondiente a los tres estratos germinales.

Conclusiones: Aunque es raro, el diagnóstico de teratoma de ovario intrarrectal debe ser considerado en pacientes con tumores del recto. El diagnóstico es relativamente fácil ante la presencia de pelos en la superficie tumoral, que se evalúa mediante endoscopia.

Palabras clave: Teratoma maduro, tumores de ovario, teratoma rectal.

Summary

Background: Primary rectal teratoma is a very rare entity. It has been suggested that these tumors grow from aberrant germinal cells of the embryonic digestive tract. Ovarian tumor can also erode the rectal wall, allowing the formation of a fistula localized inside the rectum, becoming an extremely rare complication.

Clinical case: We report the first case of a 54-year old woman with transanal bleeding whose endoscopic investigation showed a hairy-covered tumor in its surface localized 15 cm from the anal margin. A scanning detected its exact location and the presence of bony tissue within. By means of a laparotomy, we identified the left ovary fused to the anterior face of the rectum where a 5 × 4 cm tumor was originally protruding towards its lumen. Left oophorectomy was performed and through a peritumoral section of the intestinal wall we extracted the tumor from the inner rectum and closed the defect with simple sutures. Histological report demonstrated a conglomerate of tissues that corresponded to the three germinal layers.

Conclusions: Although rare, diagnosis of intrarectal ovarian teratoma must be considered as a differential diagnosis in patients with rectal tumors. Diagnosis is relatively easy in the presence of a tumor with a hairy surface that is evaluated endoscopically. For treatment we suggest a simple procedure with adequate results.

Key words: Mature teratoma, ovarian tumors, rectal teratoma.

Introducción

El teratoma maduro es un tumor formado por estructuras histológicas que corresponden a los tres estratos germinales: ectodermo, mesodermo y endodermo; está integrado por material adiposo, tejido óseo, pelos, dientes y cartilago.¹ Se localiza frecuentemente en el ovario, sin embargo, puede aparecer en otros lugares como el mediastino, retroperitoneo, hígado, trompas uterinas, testículos y

área sacrocóxigea; su localización en el recto es inusitada.²⁻⁴ Se ha sugerido que deriva de células germinales aberrantes implantadas en el recto durante la embriogénesis.^{5,6}

Hipotéticamente este tumor ovárico puede erosionar la pared rectal permitiendo la formación de una fístula a través de la cual el tumor protruya y se aloje en su luz, constituyendo una complicación extremadamente rara. El tumor, una vez localizado en el interior del recto puede provocar dolor, sangrado, inflamación, obstrucción intestinal o malignización, por lo que debe ser tratado mediante resección quirúrgica completa.

* Hospital Quito 1 de la Policía Nacional, Quito, Ecuador.

** Universidad Internacional, Quito, Ecuador.

Solicitud de sobretiros:

Williams Arias-Garzón. Hospital Quito 1 de la Policía Nacional, entre Av. Mariana de Jesús y Av. Occidental, Quito, Ecuador.
Tel.: (593) 2244 3218. Fax: (593) 2244 3249. E-mail: willariamx@yahoo.com.mx

Recibido para publicación: 02-09-2008

Aceptado para publicación: 09-06-2009

Caso clínico

Mujer de 54 años de edad, admitida por tenesmo rectal, dolor previo a la deposición y proctorragia de varios días de evolución. Mediante proctoscopia se encontró lesión polipoidea de

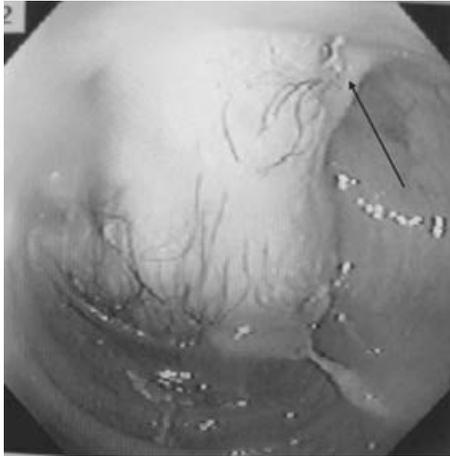


Figura 1. La rectoscopia revela un tumor a 15 cm del margen anal, con pelos en su superficie y mucosa rectal que se continúa con la neoplasia (flecha).



Figura 2. Formación heterogénea en la luz rectal con material cálcico (flecha) y abundante contenido de densidad grasa en su interior.

pedículo corto y amplio, con pelos en su superficie, localizada en el recto a 15 cm del margen anal (figura 1). Una tomografía axial computarizada mostró tumor en la luz del recto con imagen de tejido óseo en su interior (diente) (figura 2). Por laparotomía se identificó el ovario izquierdo firmemente adherido a la cara anterior del recto, de donde se originaba un tumor de aproximadamente 5 × 4 cm que protruía hacia la luz rectal. El tumor se extrajo por ooforectomía y mediante incisión perilesional de la pared rectal con margen de 1 cm del borde tumoral (figura 3); subsecuentemente se cerró el defecto mediante sutura en dos planos.

En la superficie tumoral se encontraron pelos y en su interior un diente. La bisección del tumor (figura 4) mostró tejido completamente sólido sin áreas quísticas. El estudio histopatológico demostró una conglomeración de tejidos. La superficie de la neoplasia estaba constituida por epitelio escamoso (similar a la piel),

foliculos pilosos, glándulas sebáceas, lóbulos de tejido cartilaginoso maduro, tejido óseo, lóbulos de tejido adiposo maduro, tejido linfóide y estructuras glandulares correspondientes a estómago e intestino, por lo que el tumor fue un verdadero teratoma (figura 5). La paciente tuvo adecuada recuperación posoperatoria.

Discusión

El teratoma maduro (quiste dermoide) es el tumor de células germinales más común del ovario, constituye más de 20 % de todas las neoplasias del ovario. Macroscópicamente contiene material adiposo y pelos, y por lo general posee una protuberancia sólida que contiene tejido óseo, dientes y cartilago. Microscópicamente contiene estructuras representativas de los tres es-



Figura 3. Pieza quirúrgica. El segmento de pared rectal escindido (flecha) divide la porción intraluminal neoplásica del ovario.

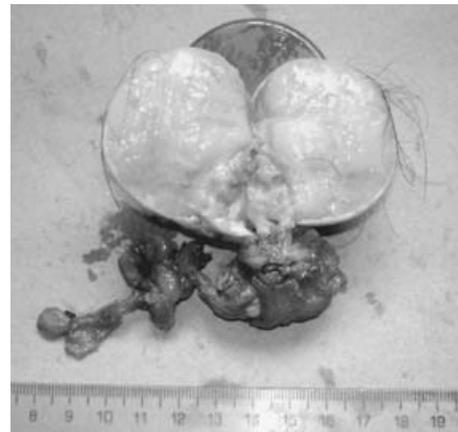


Figura 4. Bisección tumoral; nótese la ausencia de elementos quísticos.

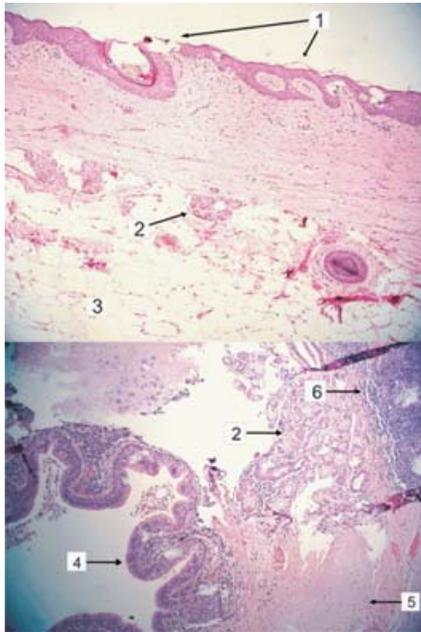


Figura 5. Estudio histopatológico que demuestra: 1. Epitelio escamoso con queratina y folículo piloso. 2. Glándulas sudoríparas. 3. Tejido adiposo. 4. Epitelio tipo respiratorio. 5. Cartílago. 6. Folículos linfoides.

tratos germinales: el ectodermo es representado más comúnmente por piel con glándulas sebáceas, sudoríparas y folículos pilosos; el endodermo, por tejido bronquial e intestinal; el mesodermo, por hueso, músculo y cartílago.¹

La localización más común es el ovario (83.2 %), sin embargo, se ha descrito la presencia de esta neoplasia en el mediastino, retroperitoneo, hígado, testículo, trompas uterinas, entre otros lugares.²⁻⁴

El origen del teratoma no está apropiadamente comprendido y su naturaleza ha dado lugar a numerosas especulaciones. 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;⁷ por esta hipotética razón, los teratomas han sido encontrados en diferentes sitios del cuerpo humano: sacrococis, mediastino, ovarios, testículo, hígado, estómago y trompas de Falopio.²⁻⁴

Dado que muchos de los teratomas se encuentran en las gónadas, esto ha permitido emitir la 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.⁸

El origen del teratoma maduro extragonadal 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. Este proceso podría explicar la elevada ocurrencia de teratomas en las gónadas, regiones presacras y tracto gastrointestinal distal.⁹

El teratoma del tracto gastrointestinal es también una entidad rara. Hasta el año 2000 solo se habían informado 47 casos de teratoma rectal en la literatura mundial.¹⁰ 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.¹⁰⁻¹²

Siendo el teratoma primario de recto una entidad extremadamente rara, se ha sugerido que crece de células germinales aberrantes del tracto digestivo embrionario. Estas células germinales primordiales son observadas a la tercera y cuarta semana de gestación a nivel del endodermo de la vesícula umbilical y se trasladan desde el mesenterio dorsal hacia la luz intestinal a través del puente gonadal. 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.¹³ Algunos autores han propuesto que tales teratomas pueden originarse de restos embrionarios totipotenciales abandonados en la cresta genital. Estas células son teóricamente implantadas en el recto durante la embriogénesis.^{5,6}

Es importante distinguir entre un teratoma primario de recto y un teratoma protruyente de ovario. Se sugiere que el tumor ovárico puede erosionar la pared rectal y permitir la formación de una fístula rectal, subsecuentemente protruir y alojarse en el interior del recto, constituyendo una complicación extremadamente rara. Se han informado estudios endoscópicos de teratomas que se han roto dentro del colon adyacente.¹⁴

La histología en los teratomas primarios del recto revela un epitelio escamoso en la superficie del tumor, mientras que los teratomas primarios de ovario son quísticos y tienen epitelio escamoso en el interior.¹⁵

Los pacientes con teratoma intrarrectal experimentan síntomas poco específicos como molestias y dolor en el abdomen bajo, constipación y sangrado transanal. El examen por rectoscopia revela pelos o dientes en la superficie tumoral. La evaluación radiológica es útil ya que permite observar dientes o tejido óseo en 39 % de casos, y la presencia de un halo formado por la pared tumoral resaltado por material adiposo en el interior.¹⁵

La sintomatología también depende de complicaciones como torsión, ruptura, infección y cambios de malignidad, aunque en

su mayoría los teratomas primarios del recto son maduros y, por lo tanto, benignos. La incidencia de transformación maligna en el teratoma maduro del ovario es menor a 2 %.^{16,17}

En nuestra paciente se identificó el ovario izquierdo firmemente adherido a la pared anterior del recto y en la luz rectal un tumor, el cual tenía continuidad con el ovario. Tales hallazgos fueron confirmados con el estudio histopatológico.

El tratamiento de elección es la escisión tumoral completa, para lo cual se han descrito 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, polipectomía transanal con o sin endoscopia.^{14,15,18}

Conclusiones

El teratoma de ovario intrarrectal, aunque raro, debe ser considerado como diagnóstico diferencial en pacientes con tumores del recto. Su determinación es relativamente sencilla ante la presencia de pelos en la superficie tumoral y puede ser evaluado mediante endoscopia. Estudios de imagen pueden confirmar el diagnóstico por la presencia de calcificaciones y también permiten evaluar su relación con los órganos pelvianos. El tratamiento es la escisión completa, que debe ser individualizada en cada paciente y depende de la cantidad de tejido resecado, de la presencia o no de inflamación local, para lo cual se han descrito varias alternativas quirúrgicas. Por sus resultados satisfactorios, sugerimos la resección del segmento comprometido y la sutura primaria del defecto.

El diagnóstico de teratoma maduro requiere estudio histológico, mismo que deberá confirmar la presencia de elementos originados de los tres estratos germinales en su composición, así como la ausencia de malignidad.

Agradecimientos

Al doctor Jaime Reséndiz Colosía, por su colaboración y tutoría en la elaboración de este trabajo.

Referencias

1. Berek JS, Hacker NF. *Practical Gynecologic Oncology*. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2002. p. 229.
2. Kiryabwire M, Mugerwa W. Teratoma of the liver in an African child. *Br J Surg* 1967;54:585-587.
3. Soysal Ö, Saraç K, Kutlu R, Aydın A, Benli A. A case of mediastinal teratoma presenting as a cystic lesion on chest wall. *Eastern J Med* 1998;3:32-33.
4. Gray D, Hitchcock G. Benign cystic teratoma of the fallopian tube. *Br J Surg* 1969;56:475-476.
5. Kay S. Teratoid cyst of the cecum. *Dig Dis* 1971;16:265-268.
6. Gowdy JM. Dermoid cyst of the cecum. *Gastroenterology* 1956;31:447-450.
7. El-Katib Y. Pedunculated teratoma of rectum infested with bilharziasis. *Br J Surg* 1972;59:655-657.
8. Kumar B, Kumar M, Sen R, Anchal N. Mature solid teratoma of the rectum: report of a case. *Surg Today* 2008;38:1133-1136.
9. Elsheikh T, Schuetz MJ. Dermoid cyst (mature cystic teratoma) of the cecum: histologic and cytologic features with review of the literature. *Arch Pathol Laboratory Med* 2002;126:97-99.
10. Takao Y, Shimamoto C, Hazama K, Itakura H, Sasaki S, Umegaki E, et al. Primary rectal teratoma: EUS features and review of the literature. *Gastrointest Endosc* 2000;51:353-355.
11. Tabuchi Y, Tsunemi K, Matsuda T. Variant type of teratoma appearing as a primary solid dermoid tumor in the rectum: report of a case. *Surg Today* 1995;25:68-71.
12. Shah R, Kaddu S, Kirtane J. Benign mature teratoma of the large bowel: a case report. *Pediatr Surg* 1996;31:701-702.
13. Deborshi S, Sanjeev K, Ashutosh T, Amrita G, Mohan K, Shukla VK. Primary rectal teratoma. *Surgery* 2008;143:570-571.
14. Park H, Park S, Kim W, Park J. Ovarian teratoma presenting as a pedunculated colonic polyp. *Endoscopy* 2006;38:E36.
15. Landmann DD, Lewis RW. Benign cystic ovarian teratoma with colorectal involvement: report of a case and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 1988;31:808-813.
16. Bal A, Mohan H, Singh SB, Sehgal A. Malignant transformation in mature cystic teratoma of the ovary: report of five cases and review of the literature. *Arch Gynecol Obstet* 2007;275:179-182.
17. Russell P. Carcinoma complicating a benign teratoma of the rectum: report of case. *Dis Col Rectum* 1974;17:550-553.
18. Green JB, Timmcke AE, Mitchell WT Jr. Endoscopic resection of primary rectal teratoma. *Am Surg* 1993;59:270-272.