



Tumor presacro como diagnóstico diferencial del sinus pilonidal recidivado

RESUMEN

Antecedentes: durante el desarrollo embriológico, el espacio retrorrectal o presacro está ocupado por células pluripotenciales y, por tanto, puede contener un grupo heterogéneo de tumores.

Caso clínico: se comunica el caso de un paciente masculino de 22 años de edad, intervenido de sinus pilonidal recidivado. Con estudios de tomografía computada de pelvis y resonancia magnética nuclear se sospechó la existencia de un tumor quístico presacro compatible con tumor germinal; la lesión se extirpó quirúrgicamente por vía abdominal y se estableció el diagnóstico definitivo de teratoma quístico.

Conclusiones: los tumores retrorrectales son lesiones poco habituales que es necesario descartar en caso de sinus recidivantes.

Palabras clave: teratoma quístico, tumor retrorrectal, tumor presacro.

Mónica Mengual-Ballester¹
Enrique Pellicer-Franco¹
Graciela Valero-Navarro¹
Eduardo Alcaraz-Mateos²
Victoriano Soria-Aledo¹
José Luis Aguayo-Albasini¹

¹Servicio Cirugía General y del Aparato Digestivo.

²Servicio de Anatomía Patológica.

Hospital Universitario José María Morales Meseguer, Murcia. España.

Presacral tumor as a differential diagnosis of recurrent pilonidal sinus

ABSTRACT

Background: Retrorectal or presacral space is occupied during embryological stem cell development and therefore may contain a heterogeneous group of tumors.

Clinical case: We report the case of a 22-year-old male with a pilonidal cyst operated due to recurrent pilonidal sinus cyst. Final diagnosis after pelvic computed tomography is large retrorectal cystic tumor and magnetic resonance diagnosis of a presacral cystic compatible with germ cell tumor. The tumor was removed surgically through the abdomen and diagnosis of cystic teratoma was established.

Conclusion: Retrorectal tumors are rare lesions whose presence must be ruled out in case of recurrent sinus.

Key words: Cystic teratoma, retrorectal tumor, presacral tumor.

Recibido: 15 de enero, 2013

Aceptado: 20 de agosto, 2013

Correspondencia:

Dra. Mónica Mengual Ballester
Servicio de Cirugía General
Hospital Universitario Morales Meseguer
Av. Marqués de los Vélez s/n
30008 Murcia, España.
Tel.: + 34 646297309
mmengual@msn.com

ANTECEDENTES

Los tumores presacros son lesiones poco habituales localizadas en el espacio retrorrectal; su incidencia es de 1 de cada 40,000 ingresos hospitalarios.¹

El espacio retrorrectal es un área de fusión y remodelación embriológica en la que pueden encontrarse tumores benignos o malignos originados de las distintas capas embrionarias.

El teratoma es uno de los tumores que pueden encontrarse en el espacio retrorrectal, derivado de las tres capas germinativas y se considera un tumor benigno, con capacidad de malignización. Se comunica un caso de teratoma retrorrectal que se diagnosticó inicialmente como sinus pilonidal recidivante.

CASO CLÍNICO

Paciente de 22 años de edad, intervenido 7 años antes de sinus pilonidal (no aporta informes) y sin otros antecedentes de interés. Acudió a Urgencias debido a dolor y un tumor con supuración espontánea en la región sacrococcígea, sin otros síntomas acompañantes. A la exploración se evidenció un absceso pilonidal parcialmente drenado; se le hizo curación local y se programó para cirugía. Dos meses después se operó con el diagnóstico de sinus pilonidal; la exéresis se hizo mediante una incisión en la línea media sacra, y cierre primario de la herida.

Una semana después de la intervención reingresó por dolor y supuración maloliente de la herida, fiebre de 39° C. Con el diagnóstico de infección de herida quirúrgica se intervino de urgencia para realizarle drenaje y curación; durante la cirugía se evidenció, en el fondo de la herida, tejido parecido a "mucosa".

Ante los hallazgos quirúrgicos se tomó una tomografía computada de pelvis, con contraste

intravenoso y rectal (Figura 1) y una resonancia magnética nuclear de pelvis con gadolinio intravenoso (Figuras 2 y 3). En las pruebas complementarias se evidenció un tumor quístico presacro de $7.2 \times 9.2 \times 9.9$ cm (transversal x anteroposterior x craneocaudal) de bordes bien definidos, con componente heterogéneo y calcificaciones en su interior, compatible con: tumor germinal tipo teratoma, que desplazaba al recto, próstata y vesículas seminales, sin infiltrarlos. Su límite craneal se situó en el borde superior de la primera vértebra sacra (S1) y en la parte más caudal había solución de continuidad por la que salía su contenido a la fosa isquierdorrectal derecha, que conformaba otro tumor heterogéneo de 6.2×3.6 cm que comunicaba con la incisión quirúrgica.

El estudio anatomopatológico de la pieza quirúrgica de exéresis del sinus describió una cavidad quística revestida por epitelio plano, poliestrificado, rellena de queratina, compatible con quiste epidermoide.



Figura 1. Tomografía computada de pelvis: tumor presacro de gran tamaño que se extiende desde el promontorio hasta el coxis, que desplaza al recto hacia delante.



Figura 2. Resonancia magnética nuclear de pelvis: gran tumor presacro con contenido graso en su interior, lo que sugiere un tumor germinal tipo teratoma.

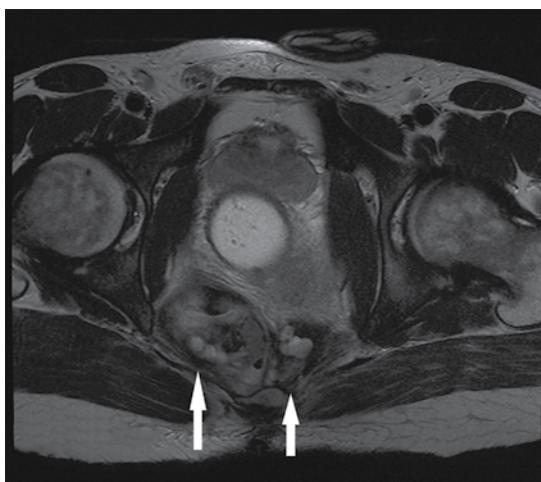


Figura 3. Resonancia magnética nuclear de pelvis: extensión de la lesión hacia la fosa isquierdorrectal derecha.

Con el diagnóstico de tumor presacro, quizás tipo teratoma, se programó la intervención quirúrgica. Al tratarse de un tumor cuyo borde superior estaba a nivel de S1, la vía de abordaje elegida fue la abdominal. Se efectuó una laparotomía media infraumbilical y se encontró un

tumor retrorrectal que ocupaba toda la pelvis, desplazaba al recto hacia delante (Figura 4), y atravesaba el músculo elevador derecho, para extenderse hacia la fosa isquierdorrectal derecha. Se liberaron el sigma y el recto y se accedió al espacio retrorrectal, donde se disecó el tumor y se realizó la exérésis (Figura 5).



Figura 4. Imagen quirúrgica: se observa el sigma y recto disecado y el tumor en el espacio presacro.



Figura 5. Pieza quirúrgica extirpada. Lesión quística extirpada, de superficie lisa y de 11 cm de longitud.

Durante el postoperatorio inmediato precisó reintervención por sangrado, durante la que se comprobó una hemorragia difusa de los músculos del suelo de la pelvis por lo que se realizó la hemostasia necesaria. El paciente fue dado de alta del hospital 10 días después del postoperatorio.

En el estudio anatomo-patológico de la pieza quirúrgica se encontró un tumor quístico de $10.5 \times 8.3 \times 6.4$ cm, revestido de epitelio tipo respiratorio ciliado, transicional, mucosecretor y escamoso queratinizante; en el espesor de la pared se identificaron anejos (glándulas sebáceas y salivares y músculo), cartílago, tejido nervioso, adiposo y linfoide; y el interior de la lesión pelo y queratina (Figura 6). Los hallazgos son compatibles con teratoma quístico maduro, sin evidencia de malignidad. Durante las revisiones posteriores en la consulta, el paciente permaneció asintomático y sin datos de recidiva.

DISCUSIÓN

El espacio retrorrectal o presacro está delimitado, posteriormente, por la fascia presacra, por delante por la fascia propia del recto, lateralmente por



Figura 6. Corte histológico macroscópico: lesión quística con contenido de pelo y material blanquecino tipo queratina.

los vasos iliacos, raíces nerviosas sacras y uréteres, y como límites superior e inferior se sitúan la reflexión peritoneal y la fascia de Waldeyer, respectivamente. Es un espacio virtual ocupado durante el desarrollo embriológico por células pluripotenciales y, por tanto, puede contener un heterogéneo grupo de tumores.²

La incidencia de los tumores presacros es baja, aunque quizás infraestimada porque muchos son asintomáticos. Los estudios publicados estiman su incidencia en torno a 1 caso de cada 40,000-60,000 hospitalizaciones.^{1,3}

Los tumores localizados a este nivel constituyen un heterogéneo grupo de lesiones que pueden ser benignas o malignas, congénitas o adquiridas, sólidas o quísticas; por ello se han establecido distintas clasificaciones, la de Uhlig y Johnson⁴ es la más utilizada, y los divide en cinco grupos: congénitos, inflamatorios, neurogénicos, óseos, y miscelánea. De todos ellos, los congénitos son los más frecuentes, constituyen entre 55 y 75% del total, y de éstos los quistes embrionarios forman 66%,³ entre los que se agrupan los quistes epidermoides, dermoides, hamartoma o quistes del intestino caudal (Tailgut cysts), y finalmente el teratoma, que es el tipo que tuvo nuestro paciente. El teratoma es el tumor congénito retrorrectal más frecuente en los niños y en la segunda década de la vida, y en el sexo femenino. Son lesiones benignas, aunque con potencial de malignización, por lo que la posibilidad de malignidad ha de estar siempre presente en el tratamiento de estos tumores.⁵ Pueden ser sólidos o quísticos, bien encapsulados y se caracterizan por contener pelo, hueso y dientes, al derivar de las tres capas embrionarias.⁶

Los síntomas de los tumores retrorrectales suelen ser insidiosos e inespecíficos, derivados de la compresión de estructuras vecinas o de su sobreinfección, por lo que el diagnóstico suele establecerse cuando las lesiones son grandes o por hallazgo en el estudio de otras afecciones.

El síntoma más frecuente es el dolor abdominal bajo, perineal o sacroiliaco, que es un factor de mal pronóstico al ser más frecuente en los tumores malignos; otros, como el cambio en el hábito intestinal, incontinencia urinaria o fecal, alteraciones en la micción o distocia, indican tumor avanzado que comprime estructuras vecinas. Otras veces la clínica es derivada de la infección del tumor, y es erróneo diagnosticarlos como abscesos perianales, fistulas o sinus pilonidiales, entre otros.^{7,8}

El diagnóstico clínico suele ser tardío porque los síntomas son inespecíficos. Si se sospecha una lesión retrorrectal, es importante realizar una exploración física que incluya la palpación abdominal, porque 95 a 97% de los pacientes tienen un tumor palpable, y es fundamental el tacto rectal porque incluso en 97% de los casos son palpables.^{7,8}

En estas lesiones las pruebas de imagen son de gran utilidad. La ecografía endorrectal permite establecer la relación o dependencia del tumor con el recto; sin embargo, la tomografía computada y la resonancia magnética nuclear son las que ofrecen mayor información. Con la tomografía computada puede distinguirse entre lesiones císticas, sólidas y mixtas, y determinar la relación e invasión de estructuras vecinas.⁹ Con la resonancia magnética nuclear puede tenerse un mejor estudio porque se obtiene mayor detalle anatómico de las lesiones y mejor contraste de los tejidos, de forma que permite establecer la sospecha de benignidad-malignidad y una aproximación del tipo de tumor presacro, y con ello una mejor planificación de la estrategia quirúrgica.¹⁰

Algunos autores recomiendan la realización de una colonoscopia de forma rutinaria en estos pacientes para descartar lesiones sincrónicas colorrectales.¹¹

La biopsia preoperatoria de estas lesiones es bastante discutida porque, por un lado tiene el

riesgo de diseminación de células tumorales o infección de la lesión y, por otro, no nos va a cambiar el tratamiento, puesto que está indicada la extirpación de todas estas lesiones, con independencia de su extirpe histológica. El único caso en que estará indicada es en lesiones irresecables, con el propósito de hacer un tratamiento adyuvante más dirigido.¹²

El tratamiento de estas lesiones es la extirpación quirúrgica, bien sea por los síntomas que origina, por el riesgo de complicación o, fundamentalmente, por la sospecha de malignidad o riesgo de degeneración.¹⁻³ La vía de abordaje quirúrgica depende de las características del paciente, del tamaño tumoral y, sobre todo, del límite superior de la lesión. Así, disponemos de tres vías de abordaje: transperineal o parasacra, abdominal y combinada. Se consideran lesiones accesibles por vía perineal las que tienen un borde superior por debajo de la tercera o cuarta vértebra sacra (S3-S4), que corresponde a tumores cuyo borde superior puede alcanzarse en el tacto rectal. En los tumores con límite superior por encima de S3-S4 debe optarse por la vía abdominal, o combinada en casos intermedios.⁷

Las lesiones neoplásicas que invaden las estructuras vecinas requieren complejas extirpaciones en bloque efectuadas por un equipo multidisciplinario.^{7,12}

El pronóstico depende del tipo de tumor y de la resección realizada. En lesiones benignas en las que la extirpación es completa, como es el caso de nuestro paciente, las tasas de supervivencia son del 100% y las de recurrencia entre 0 y 15%, para evitar la recurrencia es decisiva la extirpación en bloque y evitar la manipulación excesiva.^{12,13}

En el caso de tumores malignos la supervivencia y la recurrencia son menores, esta última incluso de 50%, a pesar de la exéresis quirúrgica radical. El tratamiento con radioterapia, quimioterapia,

o ambas, ha mejorado en los últimos años el pronóstico de estos pacientes.¹³

CONCLUSIONES

Los tumores retrorrectales son lesiones poco habituales que, de sospecharse, deben descartarse en caso de sinus recidivantes. Para poder establecer el diagnóstico es imprescindible la información de la tomografía computada o de la resonancia magnética nuclear, para planificar la estrategia terapéutica, que siempre será quirúrgica (salvo en lesiones irresecables) por vía abdominal o perineal, o ambas.

REFERENCIAS

1. Jao SW, Beart RW Jr, Spencer RJ, Reiman HM, Ilstrup DM. Retrorectal Tumors. Mayo Clinic Experience, 1960-1979. *Dis Colon Rectum* 1985;28(9):644-652.
2. Gordon PH, Nivatvongs S, Thorn Barrows S. Anorectal disorders. Retrorrectal tumors. In: Principles and Practices of Surgery for the Colon, Rectum and Anus, New York: Informa Healthcare, 2007. p. 428-445.
3. Hobson KG, Ghaemmaghami V, Roe JP, Goodnight JE, Khatri VP. Tumors of the Retrorectal Space. *Dis Colon Rectum* 2005;48(10):1964-1974.
4. Uhlig BE, Johnson RL. Presacral Tumors and Cysts in Adults. *Dis Colon Rect* 1975;18(7):581-589.
5. Park YJ. Multiple Presacral Teratomas in an 18-year-old Girl: A Case Report. *J Korean Soc Coloproctol* 2011;27(2):90-93.
6. Grundfest-Bromiatowski S, Marks K, Fabio W. Diagnosis and management of sacral and retrorectal tumors. In: Current Therapy in Colon and Rectal Surgery. Philadelphia: Mosby, 2004. p. 153-160.
7. Du F, Lin K, Hu X, Dong X, Cao F. Surgical Treatment of Retrorectal Tumors: A Retrospective Study of a Ten-Year Experience in Three Institutions. *Hepato-Gastroenterology* 2012;59(117):1374-1377.
8. Singer MA, Cintron JR, Martz JE, Schoetz DJ, Abcarian H. Retrorectal cyst: a rare tumor frequently misdiagnosed. *J Am Coll Surg* 2003;196(6):880-886.
9. Glasgow SC, Birnbaum EH, Lowney JK, Fleshman JW, Kodner IJ, Mutch DG, et al. Retrorectal Tumors: A Diagnostic and Therapeutic Challenge. *Dis Colon Rectum* 2005;48(8):1581-1587.
10. Yang BL, Gu YF, Shao WJ, Chen HJ, Sun GD, Jin HY, et al. Retrorectal tumors in adults: Magnetic resonance imaging findings. *World J Gastroenterol* 2010;16(46):5822-5829.
11. Wei G, Xiaodong T, Yi Y, Ji T. Strategy of Surgical Treatment of Sacral Neurogenic Tumors. *Spine* 2009;34(23):2587-2592.
12. Canelles E, Roig JV, Cantos M, García Armengol J, Barreiro E, Villalba FL, et al. Presacral tumors. Analysis of 20 surgically treated patients. *Cir Esp* 2009;85(6):371-377.
13. Boscà A, Pous S, Artés MJ, Gómez F, Granero Castro P, García-Granero E. Tumours of the retrorectal space: management and outcome of a heterogeneous group of diseases. *Colorectal Dis* 2012;14(11):1418-1423.