

Casos Clínicos

Teratoma inmaduro con gliomatosis peritoneal y embarazo

Agustina Franciulli M.¹, Diego Greif W.², Fernanda Nozar C.³, Verónica Fiol L.³, Daniel Mazal I.⁴, Isabel Alonso F.⁵

¹Residente de Clínica Ginecotocológica "A", ²Asistente de Clínica Ginecotocológica "A", ³Profesor Adjunto Clínica Ginecotocológica "A", ⁴Profesor Adjunto de Anatomía Patológica, ⁵Jefa del Departamento de Oncología Clínica. Centro Hospitalario Pereira Rossell, Facultad de Medicina, Universidad de la República. Montevideo, Uruguay.

RESUMEN

Presentamos el caso clínico de una paciente de 18 años sin antecedentes a destacar. Cursando las 30 semanas de embarazo se constata una tumoración abdominal que requirió tratamiento quirúrgico y se diagnosticó un teratoma inmaduro grado 3, asociado a gliomatosis peritoneal. Se realizó una cesárea al término y se instauró el tratamiento con quimioterapia presentando una recidiva a los siete meses que requirió tratamiento quirúrgico conservador y nuevo plan de quimioterapia estando actualmente libre de enfermedad y en seguimiento. Lo infrecuente de esta patología y asociada a embarazo, motivó su comunicación.

PALABRAS CLAVE: *Embarazo, teratoma inmaduro, gliomatosis*

SUMMARY

We report the case of a healthy 18-year old patient with adnexal mass diagnosed by her 30th week of pregnancy. It required surgical treatment and a grade 3 immature teratoma associated with peritoneal gliomatosis was diagnosed. A cesarean section was performed at term and subsequently chemotherapy was established. The patient presented a recurrence seven months later, which required fertility-sparing surgery and a new chemotherapy plan. The patient is currently disease-free and under surveillance. The infrequency of this disease and associated with pregnancy, led to their communication.

KEY WORDS: *Pregnancy, immature teratoma, gliomatosis*

INTRODUCCIÓN

El teratoma inmaduro de ovario es un tumor maligno formado por tejidos de las tres capas germinales: ectodermo, mesodermo y endodermo, siendo característica la presencia de estructuras embrionarias por lo general de origen neuro-ectodérmico. Constituye el 0,5% de los cánceres de ovario, 3% de todos los teratomas y el 20% de los germinales (1).

Afecta sobre todo a pacientes jóvenes con un promedio de 19 años, siendo muy infrecuente su

asociación con el embarazo, y existiendo pocos casos publicados. Se ha descrito que la incidencia de teratoma inmaduro y embarazo sería del 0,07% (1). Muchas veces estos tumores son un hallazgo ecográfico durante el embarazo, ya que la mayoría son asintomáticos. A diferencia del cáncer epitelial de ovario, los tumores germinales suelen diagnosticarse en estadios precoces y suelen tener una excelente sobrevida (2).

El tener que definir el tratamiento de una probable patología maligna durante el embarazo es un

hecho que afecta la sensibilidad del obstetra, dado que algunas de ellas sólo pueden llevarse a cabo con el riesgo de las complicaciones fetales o retrasos inaceptables en el tratamiento. Actualmente debido a su ocurrencia a una edad temprana, el tratamiento quirúrgico estándar del teratoma inmaduro de ovario tiende a ser conservador, con el fin de preservar la fertilidad, requiriendo en su mayoría tratamiento adyuvante con quimioterapia (2).

El objetivo de esta comunicación es reportar el caso de un teratoma inmaduro con gliomatosis peritoneal durante el embarazo.

Caso clínico

Primigesta de 18 años, sin antecedentes personales a destacar, que cursando 30 semanas de embarazo es derivada a nuestro Servicio por el hallazgo ecográfico de una tumoración abdominal. De la gestación actual se destaca el antecedente de amenaza de parto prematuro a las 28 semanas realizándose inducción de la maduración pulmonar fetal.

La paciente estaba asintomática, y la ecografía obstétrica informaba crecimiento fetal y líquido amniótico normal y se visualizaba una tumoración que ocupaba la totalidad del abdomen, quística, multitabuada, con espesor máximo de 7 mm, con un sector sólido de 15 por 9 cm con escasa vascularización al Doppler y sin ascitis. Se realiza una resonancia nuclear magnética que informa una tumoración abdominal de 21 por 29 centímetros, sólido-quística con múltiples tabiques en su interior. Sin ascitis ni adenomegalias, no se visualizan los ovarios (Figura 1). Se solicitaron marcadores tumorales: CEA, Ca 125 Ca 19,9 y LDH, estando elevados el Ca 19,9 y Ca 125 con valores de 291 y 127 U/ml, respectivamente. A las 32 semanas de gestación la paciente inicia disnea de decúbito y la plenitud precoz que se interpreta como debido a compresión extrínseca por la tumoración, por lo que se decide realizar una laparotomía exploradora. Del acto operatorio se destaca una tumoración sólida-quística de ovario izquierdo de 30 centímetros con su cápsula rota y la presencia de múltiples implantes a nivel del epiplón. El anexo derecho era normal y no presentaba ascitis. Se realiza lavado peritoneal para estudio citológico, anexectomía izquierda, omentectomía inframesocólica y biopsias de las goteras parietocólicas, cúpula diafragmática y fondo de saco vesicouterino, con fines estadificadores enviándose a estudio anatomopatológico diferido (Figura 2).

Cursa un postoperatorio sin complicaciones médicas ni obstétricas. Se realiza tromboprolifaxis con heparina de bajo peso molecular. Alta hospitalaria al noveno día, continuando el control obstétrico en nuestra institución.

Informe anatomopatológico: Proliferación celular de estirpe germinal que recapitula las tres hojas germinales embrionarias. Presenta áreas de revestimiento formado por epidermis y anexos cutáneos, estructuras glandulares de origen digestivo, respiratorio, salival y tejido mesenquimático, integrado por tejido vascular, muscular, cartilaginoso y óseo; existe neuroepitelio inmaduro en más de cuatro campos de bajo aumento. Se constatan micronódulos en el epiplón formados por células de tipo glial maduras, presentes también en gotera parietocólica izquierda y fondo de saco vesicouterino.

La citología del líquido peritoneal fue negativa para malignidad, por lo que se trata de un teratoma inmaduro Grado 3 asociado a una gliomatosis peritoneal; tratándose de un estadio IC según la clasificación FIGO (Figuras 3-7).

A las 38 semanas de gestación se realiza una cesárea de coordinación obteniéndose un recién nacido vigoroso de sexo femenino de 2.735 gramos. Se constatan implantes peritoneales que se biopsian tratándose de implantes teratomatosos maduros sin atipias.

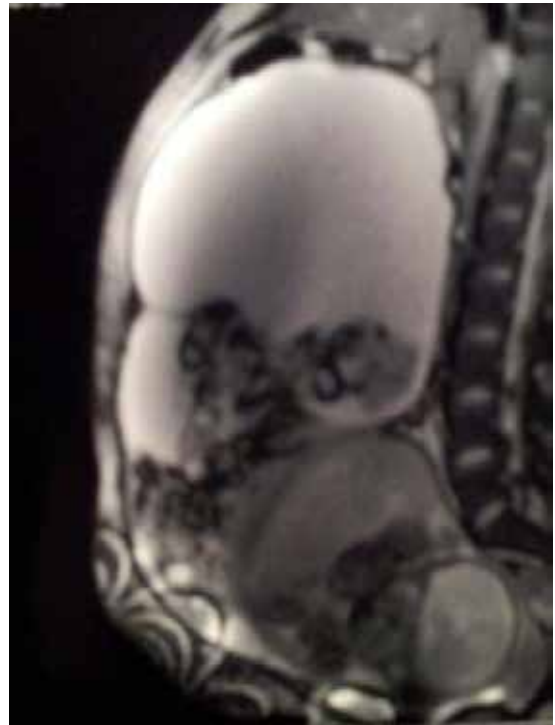


Figura 1. Resonancia nuclear magnética. Tumoración abdominal de 21 x 29 cm, sólido – quística con múltiples tabiques en su interior.

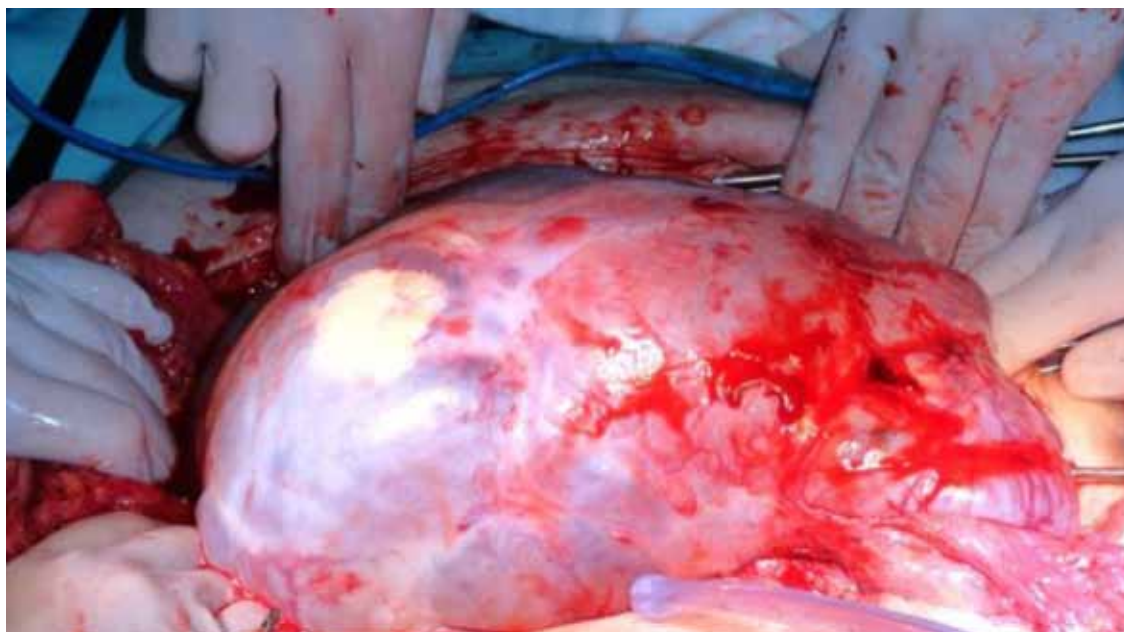


Figura 2. Tumoración sólido-quística de ovario izquierdo de 30 cm.



Figura 3. Anatomía patológica. Macroscopia tumor de ovario.



Figura 4. Anatomía patológica. Macroscopia epiplón inframesocólico con sus implantes

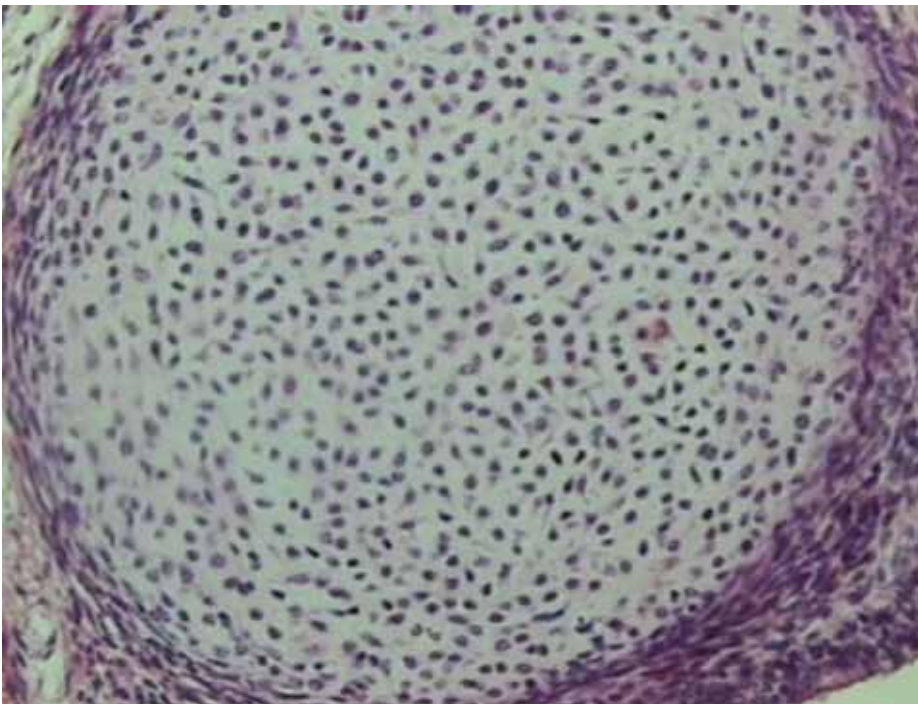


Figura 5. Anatomía patológica. Cartílago inmaduro. 200x

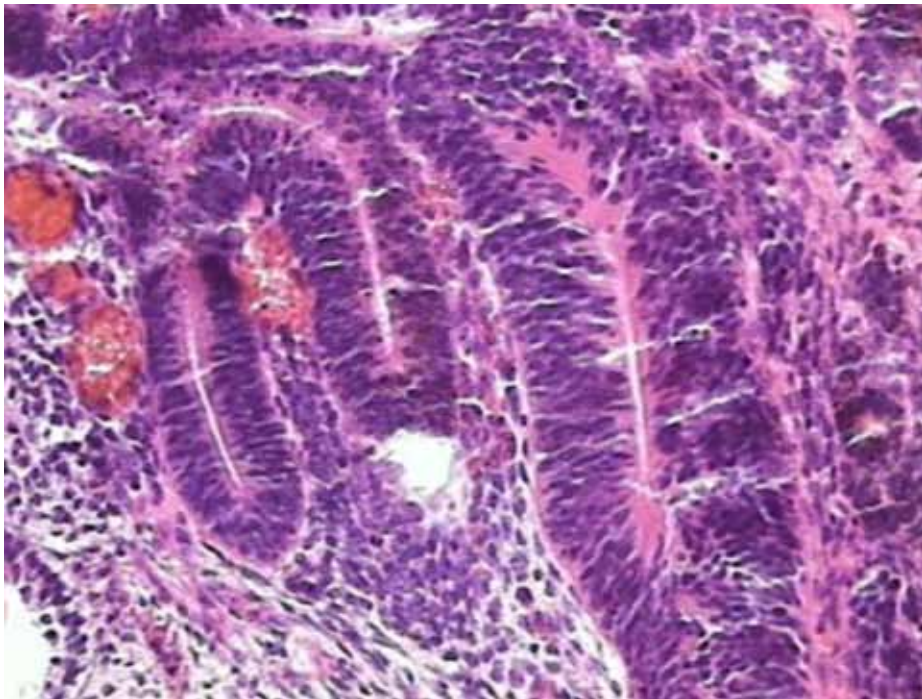


Figura 6. Neuroepitelio inmaduro. 200x.

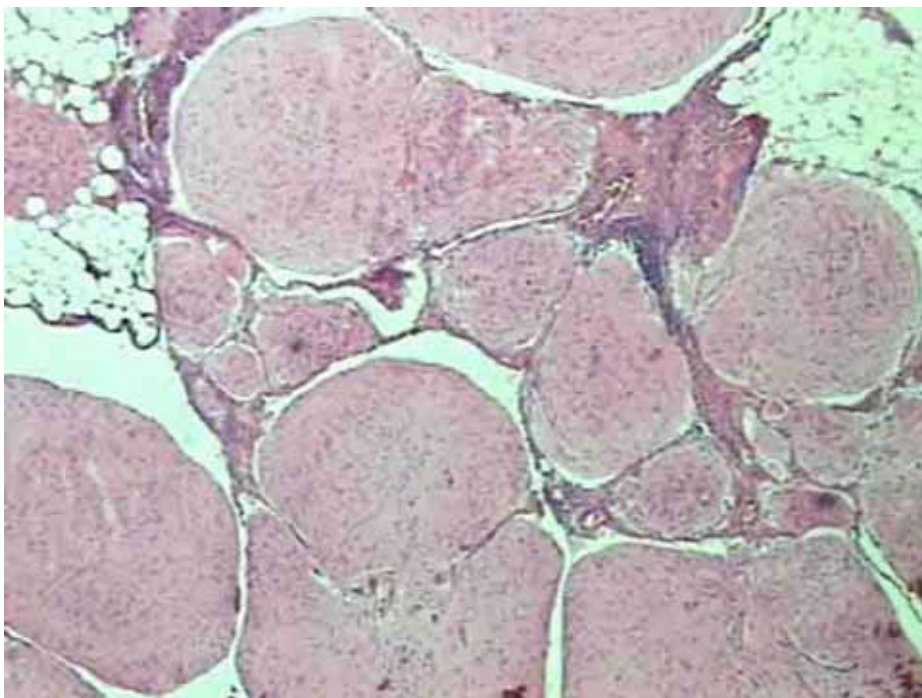


Figura 7. Anatomía patológica. Gliomatosis. 40x.

Al mes se inicia quimioterapia con cuatro ciclos de cisplatino, etopósido y bleomicina (PEB). Se realizó seguimiento con marcadores tumorales como Ca 125, alfafetoproteína, BHCG y LDH cuyos valores fueron normales. Durante la quimioterapia se realiza una tomografía de control que visualiza en la región retrouterina una imagen quística heterogénea con calcificaciones y grasa en su interior que mide 4 x 3 centímetros. Se finalizó la quimioterapia y el PET SCAN informa que se trata de una tumoración hipercaptante. A los 7 meses del diagnóstico se realiza una nueva laparotomía exploradora frente a la posibilidad que se trate de una recidiva. Del acto operatorio se destaca una tumoración peritoneal en el fondo de saco de Douglas de aproximadamente 7 centímetros sólida polilobulada. El útero y ovario derecho eran normales y presentaba múltiples implantes por toda la cavidad peritoneal que se biopsian. Se realiza la resección de la tumoración y se envía a consulta intraoperatoria que confirma un teratoma inmaduro de alto grado. Las biopsias de los implantes peritoneales informan una gliomatosis.

La paciente cursa un postoperatorio sin complicaciones y a los dos meses recibe tres ciclos de quimioterapia combinada de etopósido, ifosfamida, y cisplatino (VIP) con buena tolerancia. Actualmente se encuentra libre de enfermedad a los dieciséis meses del diagnóstico permaneciendo en seguimiento.

DISCUSIÓN

Se estima la presencia de 0,05 a 0,1% de patologías malignas durante el embarazo (3). La incidencia de tumoraciones anexiales en el embarazo es de 1 a 2% siendo en el 95% de las veces asintomáticas y unilaterales y un 20 % de las veces superan los 10 cm. Solo un 2 a 3% son malignas (4,5).

La presencia de una tumoración anexial durante el embarazo plantea desafíos tanto en el diagnóstico como en el tratamiento. En lo que respecta al estudio de tumoraciones anexiales durante el embarazo la ecografía con Doppler es sin duda el procedimiento diagnóstico de elección, ya que proporciona imágenes que orientan si la masa es benigna o maligna, con una sensibilidad para malignidad de 96,8%, especificidad de 77%, y valor predictivo positivo y negativo de 29,4% y 89,6% respectivamente (5). La resonancia nuclear magnética es un estudio que no ha demostrado efectos deletéreos para el feto, por lo que se debe solicitar para acercarnos a la naturaleza de estas tumoraciones. El aspecto del teratoma inmaduro en la ecografía y resonancia suele ser característico (1-6).

Los estudios sobre marcadores tumorales y embarazo son limitados. Durante el embarazo varios marcadores pueden estar elevados (hCG, alfafetoproteína, CA 15.3, y CA 125). Se ha descrito

que hasta un 35% de los niveles de CA 125 están por encima del nivel de corte durante el embarazo, lo que limita su uso (7).

El potencial maligno del teratoma inmaduro depende directamente del grado de neuroepitelio inmaduro. La clasificación de Norris y O'Connor los divide en tres grados según este presente en menos de 1, 1 a 3 o más de 3 campos de bajo aumento. Una nueva nomenclatura los clasifica en bajo grado (grado 1) y alto grado (grado 2 o 3) (1).

La gliomatosis peritoneal es una forma de extensión poco frecuente de los teratomas ováricos generalmente inmaduros. Se caracteriza por la implantación miliar de tejido glial dentro de la cavidad peritoneal que puede semejar un cuadro de carcinomatosis. No afecta el pronóstico si los implantes de tejido glial son de tejido maduro (8).

Frente a una tumoración abdominal sospechosa de malignidad el tratamiento quirúrgico es necesario para el diagnóstico, estadificación y tratamiento. La bibliografía plantea varias opciones para la oportunidad del mismo. La mayoría plantea la laparotomía luego de la semana 16 de gestación para disminuir el riesgo de aborto involuntario. Otros plantean que si el diagnóstico se realiza en el tercer trimestre se puede realizar el tratamiento luego del nacimiento. Existiendo autores que plantean que la cirugía no debe retrasarse si hay alta sospecha de malignidad o si la condición clínica de la paciente requiere cirugía urgente (1-3).

Existe consenso en que en pacientes jóvenes con cáncer de ovario germinal se debe instaurar un tratamiento quirúrgico conservador, con la finalidad de preservar la fertilidad incluso en estadios avanzados. Este incluye la citología de líquido peritoneal, anexectomía unilateral, biopsias peritoneales y omentectomía (2-9).

En cuanto al momento de finalizar el embarazo la mayoría de las publicaciones están de acuerdo en evitar la prematuridad iatrogénica planificando la interrupción al término del embarazo, siempre que el estado materno lo permita (3).

La quimioterapia adyuvante está indicada en la mayoría de los casos, excepto aquellas que presentan un estadio IA grado histológico 1, en las cuales se puede plantear únicamente el tratamiento quirúrgico y seguimiento (2-9).

Existen múltiples regímenes de quimioterapia basados en cisplatino con los cuales se ha logrado hasta un 90% de sobrevida a largo plazo en estadios precoces. El régimen de elección es cisplatino, etopósido y bleomicina por tres o cuatro ciclos. La mayoría de las pacientes recuperan su función ovárica luego de la quimioterapia (2).

Las recidivas pueden diagnosticarse por el aumento de marcadores tumorales, por hallazgo clínico o imágenes. En pacientes jóvenes se puede intentar la resección de la recidiva y se realiza quimioterapia de segunda línea aunque no dispone

mos de estudios de buena calidad (2).

CONCLUSIÓN

La asociación de cáncer de ovario y embarazo es muy infrecuente, siendo los de estirpe germinal los más frecuentes en pacientes jóvenes. En este caso se trató de un teratoma inmaduro de alto grado, con gliomatosis peritoneal, que presentó una recidiva que sucede en el 30% de estos tumores, pudiéndose realizar un tratamiento conservador dado los buenos resultados que ha demostrado la quimioterapia.

REFERENCIAS

1. Mourali M, Ben Haj Hassine A, El Fekih CH, Essoussi-Chikhaoui J, Binous N, Ben Zineb N, *et al.* Tératome Immature De L'ovaire Et Grossesse. *Tunis Med* 2010;88(7):507-12.
2. Gershenson D, Taylor J. Wharton Treatment of malignant germ cell tumors of the ovary. www.uptodate.com/contents/treatment-of-malignant-germ-cell-tumors-of-the-ovary/contributors. Acceso el 2 de Julio 2014.
3. Amant F, Halaska MJ, Fumagalli M, Dahl Steffensen K, Lok CH, Van Calsteren K, *et al.* Gynecologic Cancers in Pregnancy: Guidelines of a Second International Consensus Meeting. *Int J Gynecol Cancer* 2014;24(3):394-403. Erratum in *Int J Gynecol Cancer* 2014;24(4):819.
4. Agarwal N, Parul, Kriplani A, Bhatla N, Gupta A. Management and outcome of pregnancies complicated with adnexal masses. *Arch Gynecol Obstet* 2003;267(3):148-52.
5. Timor-Tritsch IE, Lener JP. Transvaginal ultrasonographic characterization of ovarian masses by means of color flow-directed Doppler measurements and amorphologic scoring system. *Am J Obstet Gynecol* 1993;168:909-13.
6. Kanal E, Barkovich AJ, Bell C, *et al.* ACR guidance document for safe MR practices: 2007. *AJR Am J Roentgenol* 2007;188:1447-74.
7. Han SN, Lotgerink A, Gziri MM, Van CK, Hanssens M, Amant F. Physiologic variations of serum tumor markers in gynecological malignancies during pregnancy: a systematic review. *BMC Med* 2012;10:86.
8. Gorostidi M, Ruiz I, Belar M, Navarrina J, Arruea M. Implantas peritoneales de tejido glial maduro (gliomatosis peritoneal) y de otros tejidos maduros asociados a teratoma ovárico inmaduro *Prog Obstet Ginecol* 2008;51(10):622-7
9. Low JJ, Perrin LC, Crandon AJ, Hacker NF. Conservative surgery to preserve ovarian function in patients with malignant germ cell tumors. A review of 74 cases. *Cancer* 2000;89(2):391-8.