

## Casos Clínicos

# Fistulización a recto de un teratoma quístico maduro, una rara complicación

José Carlos Vilches Jimenez MD<sup>1</sup>, Joaquín Carrasco Campos MD<sup>2</sup>, Iván González Poveda MD<sup>2</sup>, Belinda Sanchez Pérez MD<sup>2</sup>, Leopoldo Burgos García MD<sup>1</sup>, Jesús S Jimenez Lopez MD<sup>1</sup>.

<sup>1</sup>Servicio de Ginecología y Obstetricia, Hospital Regional Universitario Málaga, España.

<sup>2</sup>Servicio de Cirugía General y Digestiva, Hospital Regional Universitario Málaga, España

### RESUMEN

Los teratomas quísticos maduros son los tumores ováricos más frecuentes. La fistulización de estos a órganos vecinos (colon, intestino delgado y vejiga) es una complicación que cuando se presenta nos obliga a descartar un proceso infiltrativo. Tanto la malignización como la formación de fistulas son complicaciones excepcionales. Está descrito en la bibliografía la malignización como mecanismo de formación de dichas fistulas. Este hecho nos suele obligar a llevar a cabo intervenciones agresivas, como exenteraciones pélvicas anteriores y posteriores. Sin embargo, una revisión de los casos publicados (18) muestra que sólo el 22 % de las fistulas son resultado de una malignización de dicho teratoma.

Presentamos una paciente con un teratoma quístico maduro que fistulizó a recto y su manejo en nuestro servicio.

**PALABRAS CLAVE:** Teratoma, fistula, proceso inflamatorio, recto

**Precis:** La fistulización a órganos vecinos de un teratoma es una complicación excepcional que requiere un diagnóstico preciso puesto que no siempre es secundaria a neoplasia.

### ABSTRACT

Mature cystic teratomas are the most common ovarian tumors. The fistulization of these teratomas to adjacent organs (colon, small intestine and bladder) is a complication that when it occurs forces us to rule out an infiltrative process. Together with malignancy, the fistula is a rare complication. Literature describes malignancy as a mechanism for the formation of these fistulas. This event usually forces us to carry out aggressive interventions, such as anterior and posterior pelvic exenterations. However, the case records of 18 patients report that only 22 % of fistulas are produced by malignant teratoma.

The following case study presents a mature cystic teratoma that fistulated the rectum and its management in our service.

**KEYWORDS:** Teratoma, fistula, inflammatory process, rectum

## INTRODUCCIÓN

Los teratomas quísticos maduros son tumores benignos de células germinales, son los tumores ováricos más comunes, comprendiendo entre el 10-25 % de todos los casos<sup>1</sup>.

La torsión es la complicación más común de los teratomas, estando descrita en un 16% de los casos<sup>2</sup>. Sin embargo, la formación de fistulas a órganos vecinos es una complicación excepcional, que ha sido publicada en menos del 1 % de los casos<sup>1-3</sup>.

En este caso presentamos a una paciente con un teratoma que debutó con distensión y dolor abdominal y que presentaba fistulización a recto, siendo el 4º caso descrito en la literatura de un suceso de este tipo<sup>2</sup>.

## CASO CLÍNICO

Paciente de 39 años sin antecedentes personales de interés y con una gestación gemelar bicorial biamniótica, que finalizó en cesárea como único antecedente obstétrico (útero y anejos de tamaño y morfología normal) que es remitida desde atención primaria con clínica por cuadro de dolor en hipogastrio y sensación de distensión abdominal.

Exploración básica dificultosa por obesidad troncular de la paciente, (peso 103 Kg, talla 163 cm, IMC: 39'16 m<sup>2</sup>/kg) sin hallazgos significativos. Ecografía combinada (transvaginal y abdominal) con útero en indiferente con un endometrio fino, anejo derecho solido-quístico de 68x55 mm con mayor componente quístico, anejo izquierdo con formación quística de 3 cm compatible con endometrioma. Ambos anejos impresionan adheridos a cara posterior uterina. Estas formaciones ováricas eran de nueva aparición y no se tenía constancia de ellas previamente.

Marcadores tumorales con valores normales salvo CA 125 ligeramente elevado (93 UI/L, rango normal <35 UI/L). RM (Resonancia magnética) con masa anexial derecha compleja de 65x74 mm solido-quística, heterogénea, adenopatías presacras de hasta 9 mm. (Fig.1).

Se realiza también TAC (Tomografía axial computarizada) que señala lesión compatible con posible teratoma en cuyo interior se observa gas, estando la lesión muy cercana a sigma no es posible establecer con certeza la relación entre ambos (Fig. 2).

Se presenta el caso en comité de tumores ante la sospecha de patología tumoral. El comité decide

realizar una colonoscopia y un PET-TAC (Tomografía axial computarizada con emisión de positrones) como parte del estudio de extensión.

En la colonoscopia se observa compresión extrínseca con formaciones polipoides eritematosas menores de 5 mm, friables así como imágenes compatibles con hipertriosis entre 15 y 18 cm de margen anal. Ante la sospecha de teratoma infiltrante se toman biopsias cuyo resultado fueron mucosa de intestino grueso con incremento de infiltrado linfoplasmocitario y eosinofílico en lámina propia. Fragmentos de mucosa escamosa con focos de ulceración y leve inflamación crónica.

El PET-TAC rebeló una masa hipermetabólica pélvica anexial derecha que contacta con útero y pared antero lateral del recto (con captación también marcadamente aumentada). Adenopatías hipermetabólicas pararectales (Fig. 3).

Dado que la fistulización rectal de un teratoma es una posibilidad muy remota se consideró la posibilidad de una transformación maligna e invasión de recto por lo que se indicó una laparotomía exploratoria con posibilidad de realizar cirugía de estadaje en colaboración con cirugía general.

Los hallazgos intraoperatorios fueron una gran tumoración que ocupaba toda la cavidad pélvica implicando anejos, útero, sigma, recto superior y medio. Además, ciego e íleon terminal presentaban lo que parecía un implante peritoneal (biopsia intraoperatoria negativa de malignidad).

Las acciones realizadas fueron: toma de muestra de líquido ascítico, movilización y disección de colon derecho, sigma y recto superior identificando y marcando ambos uréteres. Exenteración pélvica posterior con conservación de vagina. Anastomosis ileocólica mecánica y anastomosis colorrectal con sutura mecánica quedando a 7 cm de margen anal. Tras la resección de la pieza en bloque se pudo observar la fistulización del teratoma en recto, con tejido capilar invadiendo colon (Fig. 4 y 5).

La evolución postoperatoria de la paciente fue favorable decidiéndose alta a domicilio en el 11 día postoperatorio.

La anatomía patológica definitiva corroboró la benignidad del proceso e informó de focos de endometriosis en ambos ovarios y de teratoma maduro en ovario derecho que fistulizaba hacia intestino grueso (con fibrosis, inflamación, tejido de granulación y ulceración así como tejido capilar). Adherencias severas entre colon, útero y anejos. No otras alteraciones estructurales ni signos de malignidad. Citología de líquido ascítico negativa.

El control postoperatorio a los 3 meses fue satisfactorio por lo que se decide el alta definitiva de la paciente.

## DISCUSIÓN

Los teratomas quísticos maduros son los tumores ováricos más frecuentes, comprendiendo entre el 10-25 % de todos los casos. La complicación más frecuente es la torsión (16%), otras complicaciones descritas incluyen la rotura (1-4%), la transformación maligna (1-2%) y la infección (1%)<sup>4</sup>. Sin embargo, la formación de fistulas a órganos vecinos es una complicación extremadamente rara cuya frecuencia es inferior al 1%<sup>1-3</sup>.

La transformación maligna y la invasión de órganos vecinos ha sido publicada en la literatura como causa de formación de fístulas<sup>5-7</sup>, sin embargo, esta transformación maligna no es la única vía de formación de fistulas<sup>2</sup>.

En nuestro caso realizamos la cirugía considerando la posibilidad de transformación maligna como la responsable de la fistulización. Finalmente la anatomía patológica tanto intraoperatoria como definitiva confirmaron la benignidad del proceso y concluyeron que esta fistulización fue debida a un proceso inflamatorio.

En una revisión sistemática de la literatura encontramos 17 casos publicados de teratomas quísticos maduros con fistulización entre 1938 y 2016 (tabla 1).

**Tabla 1.** Teratomas fistulizantes en la bibliografía.

<u>Autor</u>	<u>Edad</u>	<u>Síntomas</u>	<u>Órgano afecto</u>	<u>Causa formación fístula</u>
Robinson (1938)	64	Cistitis, disuria	Vejiga	Inflamación
Mitui et al. (1983)	72	Diarrea con pelo	Colon sigmoide, intestino delgado	Transformación maligna
Shiels et al. (1986)	21	Nausea, dispareunia	Colon sigmoide	Inflamación
Uistein et al. (1987)	30	Piedra en vejiga	Vejiga	Inflamación
Landmann et al. (1988)	22	Rectorragia	Recto	Inflamación
Suzuki et al. (1999)	64	Hematuria microscópica	Vejiga, intestino delgado	Inflamación
Tabata et al. (2004)	20	Piuria	Vejiga	Inflamación
Okada et al. (2005)	54	Dolor abdominal, diarrea	Intestino delgado	Transformación maligna
Cebesoy et al. (2009)	30	Dolor abdominal, diarrea purulenta	Recto	Inflamación
Tandon et al. (2010)	30	Piuria, disuria	Vejiga	Inflamación
Rajaganeshan et al. (2011)	44	Perdida peso, rectorragia	Recto	Inflamación
Salame et al. (2011)	38	Asintomático	Colón sigmoide	Inflamación
von-Walter et al. (2012)	25	Obstrucción intestinal	Intestino delgado, colon	Inflamación
Song et al. (2012)	73	Dolor abdominal, estreñimiento	Intestino delgado	Transformación maligna
Conway et al. (2012)	26	Dolor abdominal, náuseas	Colon transversal	Inflamación
Gooneratne et al. (2015)	63	Diarrea sanguinolenta, distensión abdominal	Colon sigmoide	Transformación maligna
Kizaki et al. (2016)	43	Diarrea	Recto	Inflamación
Nuestro caso	39	Distensión y dolor abdominal	Recto	Inflamación

De los 18 casos en total (contando el nuestro) la transformación maligna fue la responsable únicamente de 4 casos (22%) mientras que el proceso inflamatorio fue el responsable del resto (78%).

Una revisión retrospectiva de nuestro caso podría sugerir que la cirugía realizada en esta paciente (exenteración pélvica posterior con preservación de vagina + resección ileocecal) fue excesiva y que se

sobretrató su proceso. No obstante, nosotros consideramos que la posibilidad de malignidad y el hecho de que la paciente tenía sus deseos genésicos cumplidos justificaba realizar una resección lo más óptima posible.

De los 14 casos donde la inflamación es la responsable de la fistulización (incluido el nuestro), se

realizó cirugía ampliada en 6 (43%) de ellos debido a la posibilidad de malignización.

## CONCLUSIONES

La formación de fístulas a órganos vecinos es una complicación extremadamente infrecuente de los teratomas quísticos maduros. En nuestro caso, presentamos un teratoma fistulizante a recto donde se sospechó una posible transformación maligna.

A pesar de lo excepcional de este proceso clínico, es importante recordar que la transformación maligna de los teratomas ováricos no es la única causa en la formación de fístulas a órganos vecinos. En la mayoría de los casos descritos en la literatura, el origen de esta fistulización es inflamatorio. El tratamiento quirúrgico es la única opción cuando se confirma la presencia de fístulas. Sin embargo, es necesario recordar el valor de filiar las causas que originan dichas fístulas, para realizar la cirugía más conservadora y evitar el sobretratamiento.

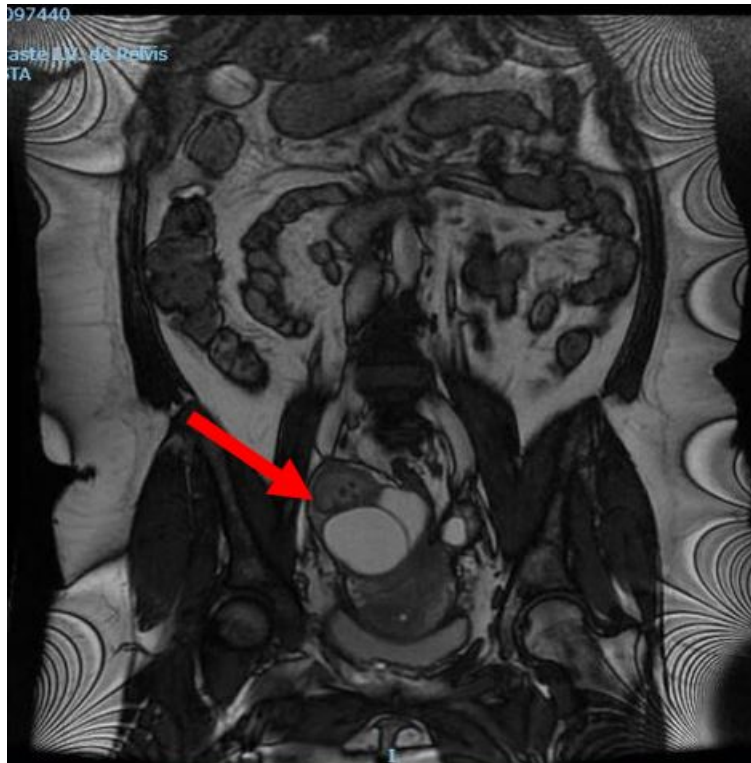
## BIBLIOGRAFÍA

1. Tandon A, Gulleria K, Gupta S, Goel S, Bhargava SK, Vaid NB .Mature ovarian dermoid cyst invading the urinary bladder. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2010; 35:751-753
2. Seki Kizaki et al .Ovarian mature cystic teratoma with fistula formation into the rectum:. *SpringerPlus* 2016; 5:1700
3. Von Walter AR, Nelken RS .Benign cystic ovarian teratoma with a fistulainto the small and large bowel. *Obstet Gynecol* 2012; 119(2 Pt 2):434-436
4. Park SB, Kim JK, Kim KR, Cho KS. Imaging findings of complications and unusual manifestations of ovarian teratomas. *Radiographics* 2008 ; 28:969-983
5. Mitui AH, Fujita R, Sugata F, Kienebuchi M, Suzuki K, Sagawa F. A case of ovarian dermoid cyst with malignant transformation perforated into the rectosigmoid colon and small intestine. *Endoscopy* 1983; 15:331-333
6. 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
7. Song W, Conner M. Squamous cell carcinoma arising within a mature cystic teratoma with invasion into the adjacent small intestine: a case report. *Int J Gynecol Pathol* 2012 ; 31:272-275
8. Robinson RH. Ovarian Teratoma, invading the bladder. *Proc R Soc Med* 1938 ; 31:1076-1077
9. Shiels WE, Dueno F, Hernandez E. Ovarian dermoid cyst complicated by an entero-ovarian fistula. *Radiology* 1986 ; 160:443-444
10. Ulstein M, Baydia JL, Pradhan U. Fistula between the urinary bladder and an ovarian dermoid tumor. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1987 ; 66:723-724
11. Landmann DD, Lewis RW. Benign cystic ovarian teratoma with colorectal involvement. Report of a case and review of the literature. *Dis ColonRectum* 1988; 31:808-813
12. Suzuki M, Fukasawa M, Hara T. Dermoid cyst with thyroid follicle perforated into bladder and ileum: a case report. *Nippon Hinyokika Gakkai Zasshi* 1999; 90:586-589
13. Tabata K, Nagakura K, Hirano I, Baba S. A case of fistula between the urinary bladder and an ovarian dermoid cyst. *Hinyokika Kiyo* 2004; 50:219-221
14. 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
15. Rajaganeshan R, Wang H, Abouleid A, Scott G, Selvasekar CR. Conservative surgery in the management of a benign ovarian cystic teratoma presenting as a rectal mass: a case report. *Ann R Coll Surg Engl* 2011; 93:e46-e48
16. Salame G, Sherer DM, Shah T, Serur E, Dalal S, Dalloul M, Abulafia O. Mature cystic teratoma of the sigmoid colon. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2011; 37:739-740
17. Conway AZ, Hanna T. A dermoid cyst fistulating with the transverse colon. *Ann R Coll Surg Engl* 2012; 94:e230-e231

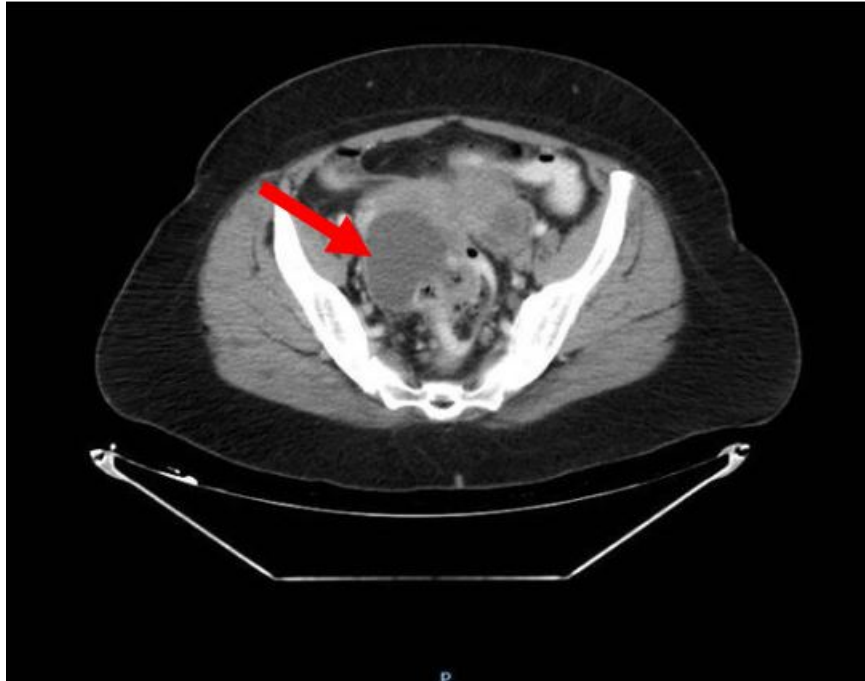
18. Gooneratne AT, James AO, Gupta J, Abdulaal Y. Squamous cell carcinoma arising in a mature cystic teratoma invading the sigmoid colon: a rare

presentation. *BMJ Case Rep.* 2015; doi:10.1136/bcr-2014-208472

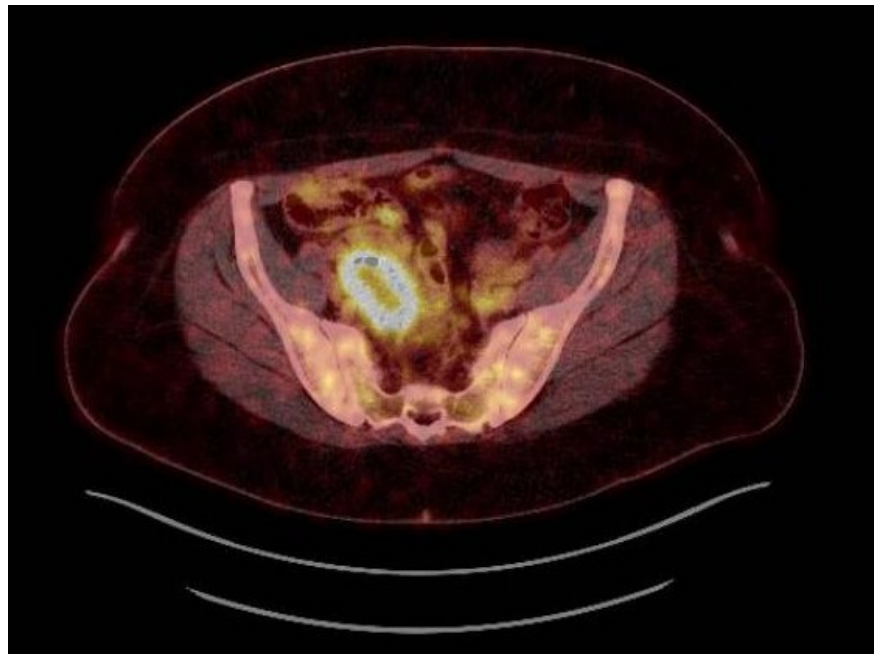
**Figura 1.** Imagen aneal derecha compleja de 65x74 mm vista en resonancia magnética



**Figura 2.** Masa anexial derecha vista en TAC. Presencia de gas en su interior.



**Figura 3.** PET-TAC masa hipermetabólica pélvica anexial derecha.



**Figura 4.** Pieza quirúrgica.



**Figura 5.** Detalle de recto seccionado longitudinalmente con pelo en su interior.

