



PROGRESOS de OBSTETRICIA Y GINECOLOGÍA

www.elsevier.es/pog



CASO CLÍNICO

Transformación maligna de tejido tiroideo en teratoma quístico maduro ovárico

Olalla Ouviaña Millán* y Paula M. González Gil

Servicio de Ginecología y Obstetricia, Complejo Hospitalario de Pontevedra, Pontevedra, España

Recibido el 25 de febrero de 2011; aceptado el 4 de mayo de 2011

Accesible en línea el 28 de septiembre de 2011

PALABRAS CLAVE

Carcinoma papilar de tiroides;
Teratoma maduro quístico;
Struma ovarii

KEYWORDS

Mature cystic teratoma;
Papillary thyroid carcinoma;
Struma ovarii

Resumen Presentamos un caso de diagnóstico accidental de teratoma ovárico maduro durante la realización de cesárea, en el que surge el hallazgo de tejido tiroideo con un área de transformación maligna en carcinoma papilar de tiroides durante el estudio histopatológico del mismo. En el seguimiento posterior de la paciente, se realiza de modo secundario el diagnóstico de un carcinoma papilar tiroideo (variante folicular), asintomático hasta el momento, no reuniendo criterios para considerar una de ambas neoplasias primaria y otra metastásica. Asimismo, presentamos una revisión acerca de la transformación maligna de tejido tiroideo en teratomas ováricos.

© 2011 SEGO. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Malignant transformation of thyroid tissue in a mature ovarian cystic teratoma

Abstract We report a case of accidental diagnosis of a mature ovarian teratoma during a cesarean section in which an area of thyroid tissue was found. Histopathological study revealed malignant transformation of the thyroid tissue into papillary thyroid carcinoma. During the subsequent follow-up, a secondary diagnosis of papillary thyroid carcinoma (follicular variant) was made, which had previously been asymptomatic. The two tumors did not meet the criteria for considering one a primary tumor and the other a metastatic tumor. We provide a review of malignant transformation of thyroid tissue into ovarian teratomas.

© 2011 SEGO. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

Los teratomas ováricos son los tumores de células germinales más frecuentes, representando aproximadamente un cuarto

de todas las neoplasias ováricas¹. Su diagnóstico está descrito en un amplio rango de edad, aunque son más frecuentes durante el periodo reproductivo. Son tumores complejos tanto desde el punto de vista morfológico como patogenético y biológico. Existen numerosas clasificaciones de estos, siendo las más utilizadas aquellas basadas en criterios histopatológicos. Así, pueden ser inmaduros o maduros (según posean elementos tisulares embrionarios o fetales, o no).

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: olallaom22@hotmail.com (O. Ouviaña Millán).

La gran mayoría de los teratomas son maduros y quísticos (quiste dermoide o teratoma quístico maduro) y suelen contener tejidos derivados de las capas endodérmica o mesodérmica embrionaria. De este modo, en los teratomas benignos se pueden hallar tejidos organizados que rememoran la composición normal de otros órganos del cuerpo (por ejemplo tejido tiroideo, que puede aparecer hasta en un 15% de los teratomas benignos).

Son mucho más infrecuentes los teratomas inmaduros, que suelen ser sólidos y tienden a aparecer en edades más jóvenes, principalmente en la primera o segunda década de la vida.

La transformación maligna de sus tejidos (o componente maligno secundario) aparece cuando estos desarrollan cambios propios de neoplasias malignas de localización habitualmente extragonadal. Esta situación es más frecuente en los teratomas inmaduros y aparece tan sólo entre el 0,2-1,4% de los teratomas quísticos maduros. El tumor más frecuente en estos casos es el carcinoma escamoso. Suele suceder en mujeres de edades superiores a las que se acostumbra diagnosticar teratomas maduros y, a diferencia de los benignos, suelen ser quísticos con focos sólidos. El pronóstico de estos tumores depende fuertemente del estadio inicial en que se diagnostica el tumor.

Una situación peculiar es la constituida por aquellos teratomas que contienen exclusivamente, o en su mayor parte, un único tipo de tejido (teratomas monodermales), más frecuentemente tumor carcinoide o tejido tiroideo, o una combinación de ambos.

Caso clínico

Paciente gestante de 33 años que presenta como antecedentes médicos de interés obesidad mórbida (índice de masa corporal 52,3 kg/m²) y diabetes mellitus tipo 2 insulino-dependiente. Sigue tratamiento con antidiabéticos orales, en proceso de evaluación por la unidad de cirugía bariátrica para intervención. Tercigesta, presenta un parto anterior a término y una cesárea por no progresión del parto en la segunda gestación. Cursa su tercera gestación, controlada en unidad de alto riesgo obstétrico debido a los antecedentes descritos, con controles fetales periódicos normales y un tórpido control glucémico. La función tiroidea es normal, valorada en cada trimestre (valores de TSH en torno a 2,5 mU/ml). Se decide inducción de parto en semana 39 ante el incremento de las necesidades insulínicas y mal control metabólico, y peso fetal estimado ecográfico superior al percentil 95 para edad gestacional. Se realiza una cesárea por fracaso de inducción. Durante ella se objetiva un ovario izquierdo aumentado de tamaño, de aproximadamente 10 cm de diámetro máximo y consistencia dura, por lo que se realiza ooforectomía izquierda. El ovario derecho es normal. El informe anatomopatológico describe un teratoma maduro quístico de ovario de 9,5 × 7,5 × 3,5 cm, multiloculado, que contiene grasa, pelos y un foco sólido en el que se halla un área de tejido tiroideo con carcinoma papilar de 2,6 × 1,8 cm de diámetro. Es remitida a endocrinología, donde el estudio de función tiroidea es normal, incluyendo niveles de tiroglobulina (7,3 ng/ml, TSH 2,67 mg/ml) y anticuerpos antitiroideos, pero presenta un nódulo palpable de 1,5 cm de tamaño ecográfico, hipoeoico y mal definido,

compatible con adenoma tiroideo. La punción-aspiración con aguja fina es informada como bocio coloide. Consensuadamente con la paciente, y tras revisión de la literatura, se realiza una tiroidectomía total (a los 10 meses de la cesárea), en la que se encuentra un carcinoma papilar tiroideo, variante folicular, de 1,4 cm de tamaño con extensión a tejidos blandos peritiroideos y 2 ganglios linfáticos positivos para tumor (estadio IV C, T3N1M1). Se realiza, poscirugía, tratamiento con dosis radioablativa de ¹³¹I. En la actualidad, permanece libre de enfermedad y sigue tratamiento sustitutivo con tiroxina, además del tratamiento propio de sus patologías de base.

Discusión

El *struma ovarii* es una variante poco frecuente de teratoma maduro monodermal compuesto por tejido tiroideo descrito a principios del siglo xx. Recibe este nombre cuando el teratoma está compuesto predominantemente por tejido tiroideo maduro (al menos un 50%, para poder clasificarlo como *struma ovarii*)¹⁻³. Representa entre el 2,5 y 5% de los teratomas ováricos^{1,2}. En sí, es una tumoración benigna, pero hasta en un 5% de casos puede desarrollar una transformación maligna de sus elementos¹, denominándose clásicamente en estos casos *struma ovarii* maligno. Hoy esta terminología está en desuso, denominándose carcinoma tiroideo originado en *struma ovarii* (*thyroid-type carcinoma arising in struma ovarii*)³. Principalmente, el tejido neoplásico desarrollado es un carcinoma papilar, menos frecuentemente corresponde a carcinoma folicular. Además de éstos, Roth et al., en 2008, han descrito una nueva entidad, variante del carcinoma folicular, denominada HDFCO (*highly differentiated follicular carcinoma of ovarian origin*), con mayor tendencia a la diseminación peritoneal pero menos agresivo debido a su alto grado de diferenciación histológico⁴. Son mucho menos frecuentes los tipos medular y anaplásico de carcinoma tiroideo en ovario. Esta transformación maligna surge mayoritariamente de las formas clásicas de *struma*, pero es extremadamente infrecuente su aparición en casos de teratomas quísticos maduros³; tal es el que presentamos. Por ello, la revisión de la literatura médica respecto a este caso incluye la referida a la transformación neoplásica del *struma ovarii*, dada la escasez de casos publicados de la sucedida en teratomas quísticos maduros.

La evidencia de malignidad surge al valorar histológicamente invasión capsular (especialmente en el caso de carcinoma folicular) y del ovario circundante, invasión vascular o presencia de metástasis². Han sido documentados pocos casos de metástasis de *struma ovarii* maligno, con una frecuencia aproximada entre un 5 y 23%³. Su comportamiento es similar al de otros tumores ováricos primarios, tendiendo a metastatizar en cavidad peritoneal (ovario contralateral, epiplón), vía linfática, de forma similar a otros tumores ováricos primarios (ganglios pélvicos y paraaórticos), y vía hematogena a hueso, hígado y cerebro¹⁻³. No se han descrito casos de metástasis en glándula tiroidea y sí a la inversa (metástasis ovárica de tumor primario tiroideo). En estos casos, las masas ováricas suelen ser bilaterales y carecen de componente teratomatoso².

La edad media de presentación del carcinoma tiroideo sobre *struma ovarii* se sitúa entre 42,9-44 años, y entre 21 a

68 para la variante de carcinoma papilar³. Es más frecuente en el ovario izquierdo^{3,5}. Clínicamente, la forma de presentación predominante es como masa pélvica o dolor abdominal (45%), menos frecuentemente hipertiroidismo (5-8%) o ascitis (17%)³. Zannoni et al. describieron en 2004 un caso de seudósndrome de Meigs asociado a un *struma ovarii* maligno⁵. Se postula que el tejido tiroideo ovárico en el *struma* es autónomo en la producción de hormonas tiroideas, por lo cual es fundamental la medición de niveles séricos de tiroglobulina en pacientes afectadas de hipertiroidismo, ya que orientan hacia la producción extratiroidea de hormona tiroidea^{2,3,6}.

Debido a la rareza del *struma ovarii* maligno, su tratamiento quirúrgico y manejo postoperatorio óptimo no están todavía bien definidos, y se presenta difícil la validación prospectiva de estrategias terapéuticas para el mismo^{2,3,7}. El manejo clínico y terapéutico de esta entidad se suele basar en pequeñas series de casos y revisiones publicadas, tal ha sido nuestra actitud respecto al caso publicado. Existen autores que proponen su manejo similar al de otros tumores de células germinales, y otros lo equiparan al carcinoma tiroideo primario. Las opciones de tratamiento quirúrgico se basan en la exéresis de la neoplasia ovárica³ y abarcan desde la cirugía más radical (histerectomía total más salpingooforectomía bilateral acompañada de lavado peritoneal, linfadenectomía pélvica, paraaórtica y omentectomía), hasta las opciones más conservadoras (ooforectomía unilateral e incluso quistectomía), que se contemplan posibles en casos de mujeres jóvenes con deseo de descendencia, en las que no existe evidencia de invasión vascular o metástasis a distancia.

Existe discrepancia entre autores acerca de la necesidad de incluir la ablación tiroidea en el tratamiento del *struma ovarii* maligno. Recientemente, Yassa⁸ estratificó el riesgo de permanencia o recurrencia del *struma ovarii* maligno en riesgo bajo (foco de malignidad menor de 2 cm, sin criterios histológicos de riesgo), para los cuales establece la posibilidad de tratamiento conservador mediante ooforectomía y seguimiento periódico mediante tiroglobulina sérica, y de riesgo alto (grandes carcinomas, enfermedad extraovárica o patrones histológicos más agresivos), en las que indica tiroidectomía total más radioablación con ¹³¹I. Janszen en el mismo año recomienda supresión tiroidea más seguimiento a largo plazo mediante niveles de tiroglobulina en todos los casos de *struma* maligno mayor de un centímetro de tamaño⁹.

El seguimiento sobre la base de la tiroglobulina sérica, análogamente al realizado en paciente con cáncer tiroideo, se basa en que esta es producida en el tejido tiroideo del *struma* benigno y maligno. Elevaciones en sus niveles por

encima de 10 ng/ml en pacientes clínicamente libres de enfermedad, tanto en paciente tiroidectomizadas o no, sugieren recurrencia de la misma, por lo que indica la realización de rastreo corporal total con iodo radiactivo o, si éste no es efectivo, con tomografía por emisión de positrones/tomografía computarizada¹⁰.

Recientemente, Yücesoy defiende la realización sistemática de tiroidectomía seguida de supresión con ¹³¹I, tras completar el tratamiento ginecológico, debido a la imposibilidad que existe en estos casos, a causa de su rareza, de excluir un tumor tiroideo primario, y para establecer un seguimiento basado en rastreo corporal con yodo radiactivo y niveles séricos de tiroglobulina que permita reconocer recurrencias y metástasis de la enfermedad¹.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Yücesoy G, Cakiroglu Y, Muezzinoglu B, Besnili B, Yücesoy I. Malignant struma ovarii: a case report. *J Korean Med Sci*. 2010; 25:327–9.
2. Salman WD, Singh M, Twaij Z. A case of papillary thyroid carcinoma in struma ovarii and review of the literature. *Patholog Res Int*. 2010;352476.
3. Zhang X, Axiotis C. Thyroid-type carcinoma of struma ovarii. *Arch Pathol Lab Med*. 2010;134:786–91.
4. Roth LM, Karseladze AI. Highly differentiated follicular carcinoma arising from struma ovarii: a report of 3 cases, a review of the literature, and a reassessment of so-called peritoneal strumosis. *Int J Gynecol Pathol*. 2008;27:213–22.
5. Zannoni GF, Gallotta V, Legge F, Tarquini E, Scambia G, Ferrandina G. Pseudo-Meigs' syndrome associated with malignant struma ovarii: a case report. *Gynecol Oncol*. 2004;94: 226–8.
6. Tomee JF, Van der Heijden PF, Van den Hout JH, Brinkhuis M, Veneman TF. Papillary carcinoma in struma ovarii: an unusual presentation. *Neth J Med*. 2008;66:248–51.
7. Kabukcuoglu F, Baksu A, Yilmaz B, Aktumen A, Evren I. Malignant struma ovarii. *Pathol Oncol Res*. 2002;8:145–7.
8. Yassa L, Sadow P, Marqusee E. Malignant struma ovarii. *Nat Clin Pract Endocrinol Metab*. 2008;4:469–72.
9. Janszen EW, Van Doorn HC, Ewing PC, De Krijger RR, De Wilt JH, Kam BL, et al. Malignant struma ovarii. *Ned Tijdschr Geneesk*. 2008;152:1647. author reply 1647-8.
10. Makani S, Kim W, Gaba AR. Struma Ovarii with a focus of papillary thyroid cancer: a case report and review of the literature. *Gynecol Oncol*. 2004;94:835–9.