



CIRUGÍA y CIRUJANOS

Órgano de difusión científica de la Academia Mexicana de Cirugía
Fundada en 1933

www.amc.org.mx www.elsevier.es/circir



CASO CLÍNICO

Adenocarcinoma de células claras originado de endometriosis en pared abdominal



CrossMark

Erik Efraín Sosa-Durán^{a,*}, Ziad Aboharp-Hasan^a,
Roberto Cuauhtémoc Mendoza-Morales^b, Francisco Mario García-Rodríguez^a,
Xicoténcatl Jiménez-Villanueva^a y José Rafael Peñavera-Hernández^b

^a Unidad de Oncología, Hospital Juárez de México, Secretaría de Salud, México, D.F., México

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Juárez de México, Secretaría de Salud, México, D.F., México

Recibido el 15 de octubre de 2014; aceptado el 27 de enero de 2015

Disponible en Internet el 11 de agosto de 2015

PALABRAS CLAVE

Carcinoma células
claras;
Transformación
maligna;
Endometriosis

Resumen

Antecedentes: El carcinoma de células claras originado en la pared abdominal es una entidad rara y generalmente está asociado a implantes iatrogénicos de tejido endometrial, por una incisión quirúrgica durante la operación cesárea u otros procedimientos ginecológicos, su fisiopatología es compleja y controversial.

Caso clínico: Paciente del sexo femenino de 45 años con antecedente de 3 cesáreas, que acude con masa tumoral en la pared anterior del abdomen de 6 meses de evolución. Los estudios de imagen confirmaron su localización, con dimensiones de 9 por 7 cm que hicieron sospechar en un tumor del uraco; con ese diagnóstico se decidió llevar a resección amplia. El reporte final de patología fue de adenocarcinoma de células claras originado en foco endometriótico, con márgenes quirúrgicos negativos.

Conclusión: Esta entidad es excepcionalmente rara, hay pocos casos publicados, su conocimiento es esencial para incluirla en el diagnóstico diferencial de tumores de pared abdominal. Publicado por Masson Doyma México S.A. a nombre de Academia Mexicana de Cirugía A.C. Este es un artículo Open Access bajo la CC BY-NC-ND licencia (<http://creativecommons.org/licencias/by-nc-nd/4.0/>).

KEYWORDS

Clear cell carcinoma;
Malignant
transformation;
Endometriosis

Clear cell adenocarcinoma arising from abdominal wall endometriosis

Abstract

Background: Clear cell carcinoma originating in the abdominal wall is a rare event. It is generally associated with endometrial tissue implants left behind after a caesarean section or other gynaecological operations. Its pathophysiology is complex and controversial.

* Autor para correspondencia. Hospital Juárez de México, Unidad de Oncología, Av. Instituto Politécnico Nacional No. 5160, Col. Magdalena de la Salinas, Del. Gustavo A. Madero C.P. 07760 México D.F. Ext.: 7254. Tel.: +57477560.

Correo electrónico: eriksosa2011@hotmail.com (E.E. Sosa-Durán).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.circir.2015.06.024>

0009-7411/Publicado por Masson Doyma México S.A. a nombre de Academia Mexicana de Cirugía A.C. Este es un artículo Open Access bajo la CC BY-NC-ND licencia (<http://creativecommons.org/licencias/by-nc-nd/4.0/>).

Clinical case: The case is presented of a 45 year-old female with history of three caesarean sections, who was seen due to having a tumour mass of 6 months onset in the anterior abdominal wall. Imaging studies confirmed its location, and due to measuring 9 by 7 cm it was suspected to be an urachal tumour. A resection with wide margins was performed. The histopathology report was of a clear cell adenocarcinoma originated in ectopic endometrial tissue, with negative margins.

Conclusion: This is a very rare case, with few cases reported in the literature. This diagnosis should be included in tumours of the abdominal wall.

Published by Masson Doyma México S.A. on behalf of Academia Mexicana de Cirugía A.C. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Antecedentes

La presencia y el crecimiento de tejido endometrial fuera del útero se denomina endometriosis y si forma una colección quística se conoce como endometrioma¹; su prevalencia es variable², en la edad reproductiva es del 10% y se eleva al 30-50% cuando está asociado a dolor pélvico e infertilidad. La edad promedio de presentación es 30 años (rango 25-35), el hueco pélvico es el sitio de afección principal (75% en el ovario); sin embargo, cualquier parte del cuerpo puede afectarse¹ (pulmón, ojo, cerebro, tejidos blandos). La pared abdominal es el sitio extrapélvico más frecuente^{3,4}, su fisiopatología es compleja y controversial, existen diversas teorías que explican su origen, tales como¹: menstruación retrógrada, metaplasia del epitelio celómico, diseminación vascular y linfática, activación de restos embrionarios y los implantes iatrogénicos durante un procedimiento quirúrgico abierto o laparoscópico de cirugías ginecológicas como la cesárea (57% casos) e hysterectomías.

Tiene una incidencia de 0.03 a 3.5%^{3,5,6}, su transformación maligna es extremadamente rara^{7,8}, pero está descrita desde 1925⁹.

Se manifiesta¹⁰⁻¹³ como una masa tumoral subcutánea de crecimiento progresivo asociada a dolor cíclico durante la menstruación.

El abordaje diagnóstico incluye: ultrasonido de pared abdominal, biopsia para documentar la malignidad, que se complementa con una tomografía axial computada para evaluar la extensión y resecabilidad.

Los diagnósticos diferenciales incluyen causas benignas, como hernia incisional, hematoma de la vaina de los músculos rectos del abdomen, y neoplasias primarias de pared abdominal o metastásicas.

Su tratamiento es la resección amplia con reconstrucción de la pared abdominal, que generalmente aportan buenos resultados oncológicos; sin embargo, la experiencia es limitada por la rareza de esta entidad.

Objetivo

Presentamos un caso clínico que simuló un tumor de uraco.

Caso clínico

Paciente del sexo femenino de 45 años de edad, con historia de dismenorrea y 3 cesáreas previas, que consultó

por una masa tumoral en la región anterior del abdomen a nivel infraumbilical del lado izquierdo, de 6 meses de evolución (fig. 1), se confirmó su localización con la tomografía axial computada con dimensiones de 9 por 7 cm, con infiltración de músculos rectos del abdomen y tejido graso, así como compresión de la vejiga (fig. 2). Con el diagnóstico de tumor de uraco se llevó a laparotomía exploradora y resección en bloque de la pared abdominal con 2 cm de margen y reconstrucción de la pared abdominal (fig. 3). El diagnóstico



Figura 1 Imagen clínica de la paciente que muestra aumento de volumen en lado izquierdo suprapúbico.

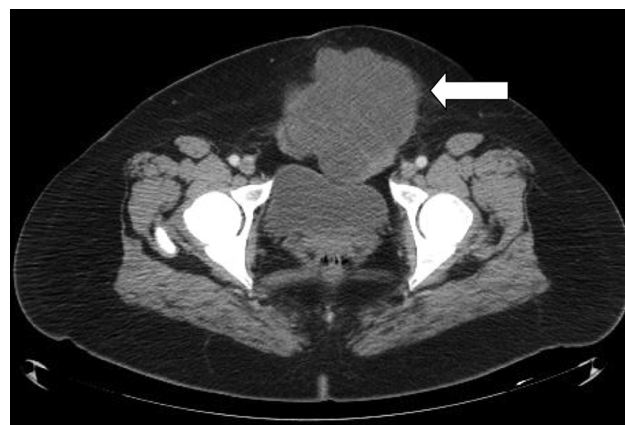


Figura 2 Imagen de tomografía axial computada que muestra un tumor de pared abdominal transmural que comprime la vejiga.

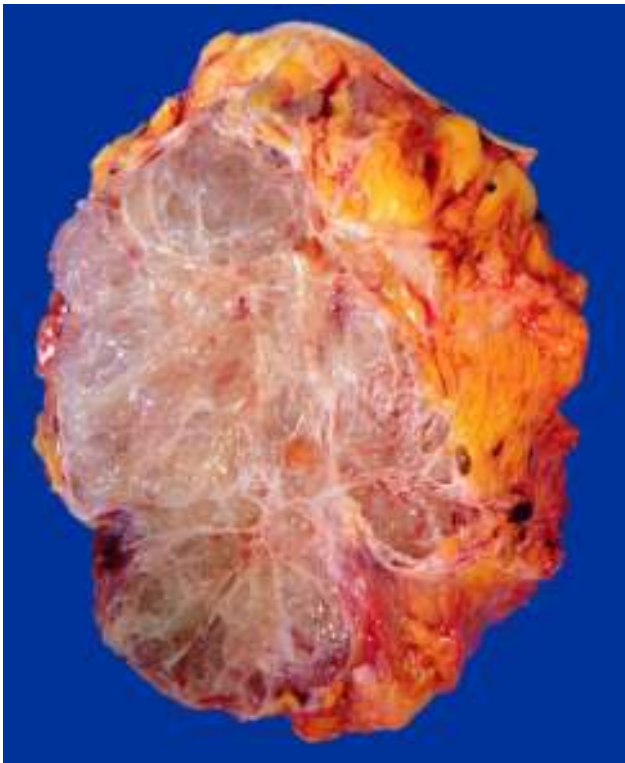


Figura 3 Espécimen de resección amplia de pared abdominal donde se observa una lesión nodular multiquistica, de bordes delimitados con infiltración focal a tejidos blandos.

histopatológico fue: carcinoma de células claras primario de pared abdominal originado en foco endometriósico, con márgenes quirúrgicos negativos (figs. 4-6).

Actualmente, la paciente está viva, sin enfermedad a 16 meses de su tratamiento.

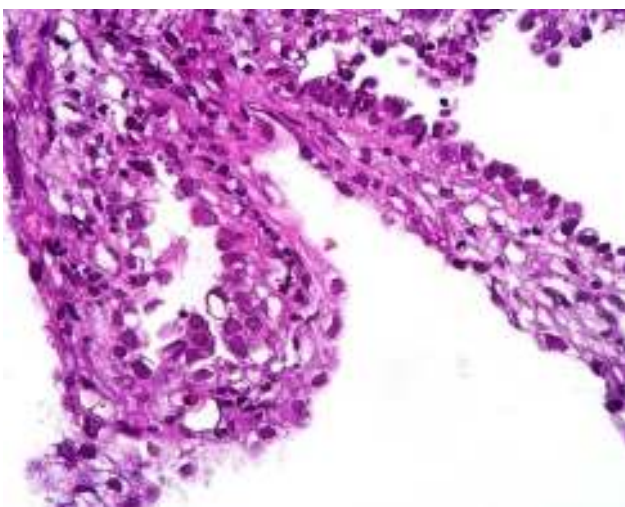


Figura 4 Tumor que muestra un patrón tubuloquistico y papilar con espacios quísticos revestidos, células tumorales poligonales de citoplasma claro con pleomorfismo nuclear y células tumorales en estoperol y células claras (hematoxilina y eosina).

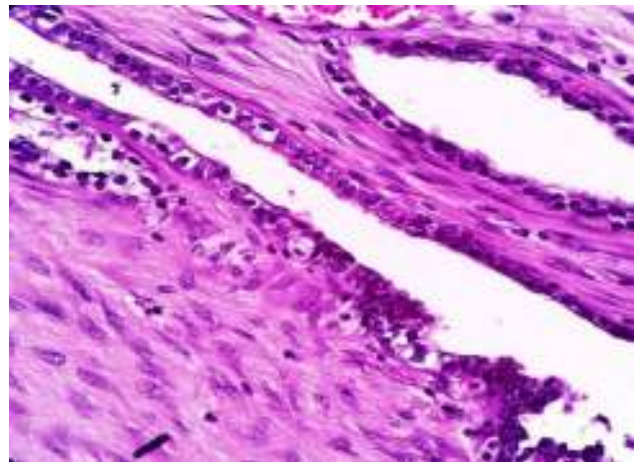


Figura 5 Foco de endometriosis con atipia focal, donde se observan áreas con núcleos hiper cromáticos, pleomorfismo moderado y estratificación con área de transición entre células epiteliales endometriales displásicas y carcinoma de células claras (hematoxilina y eosina).

Discusión

La endometriosis es una condición ginecológica crónica de tipo benigno, definida por la localización ectópica de glándulas y estroma endometrial, frecuente en edad reproductiva. El curso natural de la enfermedad es impredecible, infiltra, invade y tiene alta capacidad de diseminación, generalmente se resuelve en la menopausia⁷. Los implantes en pared abdominal durante una cesárea o una histerotomía tienen una incidencia menor al 1%³, se estima que al menos el 1% de los implantes endometriósicos presentan transformación maligna⁷; el mecanismo de progresión de atipia a carcinoma es desconocido¹⁴, al parecer está relacionado con la exposición hormonal y a la inflamación crónica que conlleva un daño genético. Hay 3 teorías que tratan de explicar la carcinogénesis y la *primera* propone que el epitelio endometriósico sirve como precursor del cáncer de la misma, de forma que el epitelio de la superficie ovárica normal da

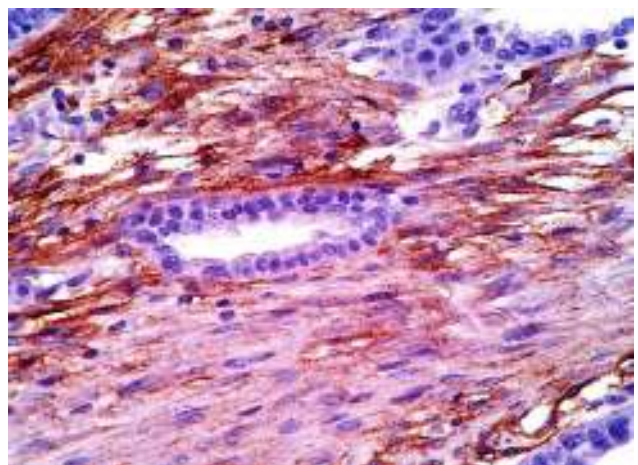


Figura 6 Células estromales endometriales con inmunomarcación positiva citoplasmática a CD10 adyacente una glándula endometrial.

origen a los tumores ováricos, los cuales pueden ser tumores epiteliales, estromales o limitrofes. La *segunda* se refiere al parecido en el proceso carcinogénico de la neoplasia endometrial, el cual está bajo la influencia de estrógenos constante y conduce a un tumor endometrial. La tercera que es considerada la más precisa, sugiere que la carcinogénesis se debe a la influencia de un microambiente en el interior de la endometriosis que está expuesto al estrés oxidativo y a la inflamación crónica, que promueve tumores de fenotipo atrófico con crecimiento lento, tal como el carcinoma de células claras¹⁵.

El tipo histológico más común originado en endometriosis extraovárica es el adenocarcinoma de células claras (62%)¹⁶, solo se han reportado 15 casos desde 1980 hasta la fecha^{17,18}.

La sospecha diagnóstica de un endometrioma o de su malignización se basa en la presencia de un tumor subcutáneo de la pared abdominal, con crecimiento progresivo y que es adyacente a una cicatriz quirúrgica; que además se asocia con dolor cíclico durante la menstruación (dismenorrea)^{19,20}, y el se sustenta en los criterios histopatológicos de Sampson-Scott, que son: la coexistencia de tejido endometrial benigno y maligno en el tumor, apariencia histológica consistente con origen endometrial, demostrar la fase displásica en el tejido endometrial tumoral y excluir otro sitio primario tumoral. La fase displásica o endometriosis atípica fue descrita de acuerdo con Liu et al. en 1988¹⁸, que se caracteriza por glándulas endometriales con atipia arquitectural y citológica (núcleos hiper cromáticos con pleomorfismo moderado a marcado, con aumento de la relación núcleo-citoplasma, sobreposición celular y estratificación²¹). En nuestro caso los criterios de Sampson-Scott fueron cumplidos, sin embargo, no siempre son valorables debido a que se requiere un amplio muestreo en múltiples niveles y la transformación maligna extensa impide observar los focos endometriósicos benignos^{17,18,22}.

La demostración de las células del estroma endometrial es crucial; en ocasiones, puede simular reacción estromal o infiltrado inflamatorio crónico. Un inmunomarcador importante es la expresión de CD10 en las células estromales, ya que es sensible y específico de endometriosis en sitios extragonadales^{23,24}. La expresión nuclear de P53 es también reportada por ser elevada en la zona de transformación maligna y ausente en la endometriosis benigna y tiene una sensibilidad del 87% y especificidad del 92% en endometriosis atípica y cáncer asociado a endometriosis²³. En nuestro caso tanto CD10 como P53 fueron positivos.

Los diagnósticos diferenciales incluyen: metástasis de carcinoma de células renales a pared abdominal, pero es menos probable si se identifica pleomorfismo y células en estoperol. El mesotelioma puede presentarse con un patrón quístico o sólido con pleomorfismo marcado, aunque las células en estoperol y de citoplasma claro son poco frecuentes²⁵, los marcadores de inmunohistoquímica son útiles para distinguirlos; el mesotelioma presenta positividad para CQ 5/6, calretinina, D240 mientras que en el carcinoma de células claras son negativos. Otro diagnóstico diferencial clínicamente en el presente caso fue el carcinoma del uraco, debido a la cercanía con el domo vesical, sin embargo, no fue compatible histológicamente ni inmunofenotípicamente en ninguna de sus subtipos, entre los más frecuentes están el mucinoso, entérico y células en anillo de sello, ya que nuestro caso fue negativo para CDX2 y CQ 20. Un tercer

diagnóstico que se consideró fue el linfangioma quístico peritoneal, debido a las cesáreas previas de la paciente y al patrón de crecimiento quístico.

Histológicamente, se caracteriza por presentar nódulos linfoides, músculo liso en su pared y las células de revestimiento expresan marcadores como: D240, CD 31 y CD 34; sin embargo, nuestro caso fue negativo a estos marcadores y morfológicamente presentó áreas de células claras y en estoperol, las cuales son infrecuentes en el linfangioma quístico.

A pesar de la poca evidencia en la bibliografía consultada, por la rareza de esta entidad, el tratamiento recomendable es la resección quirúrgica con márgenes amplios²⁶, que aporta buenos resultados y una supervivencia mayor del 80% a los 5 años.

Conclusión

La transformación maligna de focos endometriósicos depositados durante una cirugía ginecológica está bien descrita. Se debe sospechar de cualquier nódulo grande, doloroso, de rápido crecimiento en cicatrices de cesáreas previas; el patólogo desempeña un rol muy importante en su diagnóstico.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Seli E, Berkkanoglu M, Arici A. Pathogenesis of endometriosis. *Obstet Gynecol Clin N Am*. 2003;30(1):41-61.
2. Ding Y, Zhu J. A retrospective review of abdominal wall endometriosis in Shanghai, China. *Int J Gynaecol Obstet*. 2013;121(1):41-4.
3. Nominato NS, Prates LF, Lauar I, Morais J, Maia L, Geber S. Caesarean section greatly increases risk of scar endometriosis. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*. 2010;152(1):83-5.
4. Horton JD, DeZee KJ, Ahnfeldt EP, Wagner M. Abdominal wall endometriosis: a surgeon's perspective and review of 445 cases. *Am J Surg*. 2008;196(2):207-12.
5. Esquivel-Estrada V, Briones-Garduño JC, Mondragón-Ballesteros R. Implante de endometriosis en cicatriz de operación cesárea. *Cir Cir*. 2004;72(2):113-5.
6. Bektaş H, Bilsel Y, Sari YS, Ersöz F, Koç O, Deniz M, et al. Abdominal wall endometrioma; a 10-year experience and brief review of the literature. *J Surg Res*. 2010;164(1):e77-81.
7. Vargas-Hernández VM. La endometriosis como factor de riesgo para cáncer de ovario. *Cir Cir*. 2013;81(2):163-8.
8. Verit FF, Yucel O. Endometriosis, leiomyoma and adenomyosis: The risk of gynecologic malignancy. *Asian Pac J Cancer Prev*. 2013;14(10):5589-97.
9. Sampson JA. Endometrial carcinoma of the ovary, arising in endometrial tissue in that organ. *Arch Surg*. 1925;10:1-72.
10. Da Ines D, Bourdel N, Charpy C, Montoriol PF, Petitcolin V, Canis M, et al. Mixed endometrioid and serous carcinoma developing in abdominal wall endometriosis following Cesarean section. *Acta Radiol*. 2011;52(5):587-90.
11. Yan Y, Li L, Guo J, Zhang Y, Liu Q. Malignant transformation of an endometriotic lesion derived from an abdominal wall scar. *Int J Gynaecol Obstet*. 2011;115(2):202-3.

12. Mert I, Semaan A, Kim S, Ali-Fehmi R, Morris RT. Clear cell carcinoma arising in the abdominal wall: Two case reports and literature review. *Am J Obstet Gynecol*. 2012;207(2):e7-9.
13. Ozel L, Sagioglu J, Unal A, Unal E, Gunes P, Baskent E, et al. Abdominal wall endometriosis in the cesarean section surgical scar: A potential diagnostic pitfall. *J Obstet Gynaecol Res*. 2012;38(3):526-30.
14. Pollacco J, Sacco K, Portelli M, Schembri-Wismayer P, Calleja-Agius J. Molecular links between endometriosis and cancer. *Gynecol Endocrinol*. 2012;28(8):577-81.
15. Fargas Fàbregas F, Cusidó Guimferrer M, Tresserra Casas F, Baulies Caballero S, Fàbregas Xauradó R. Malignant transformation of abdominal wall endometriosis with lymph node metastasis: Case report and review of literature. *Gynecol Oncol Case Rep*. 2014;8:10-3.
16. Bats AS, Zafrani Y, Pautier P, Duvillard P, Morice P, Morice P. Malignant transformation of abdominal wall endometriosis to clear cell carcinoma: Case report and review of the literature. *Fertil Steril*. 2008;90(4):1197, e13-e16.
17. Shalin SC, Haws AL, Carter DG, Zarrin-Khameh N. Clear cell adenocarcinoma arising from endometriosis in abdominal wall cesarean section scar: A case report and review of the literature. *J Cutan Pathol*. 2012;39(11):1035-41.
18. Liu H, Leng J, Lang J, Cui Q. Clear cell carcinoma arising from abdominal wall endometriosis: A unique case with bladder and lymph node metastasis. *World J Surg Oncol*. 2014;12:51.
19. Kobayashi H, Sumimoto K, Moniwa N, Imai M, Takakura K, Kuro-maki T, et al. Risk of developing ovarian cancer among women with ovarian endometrioma: A cohort study in Shizuoka, Japan. *Int J Gynecol Cancer*. 2007;17(1):37-43.
20. Achach T, Rammeh S, Trabelsi A, Ltaief R, Ben Abdelkrim S, Mokni M, et al. Clear cell adenocarcinoma arising from abdominal wall endometriosis. *J Oncol*. 2008;2008:478325.
21. Leng J, Lang J, Guo L, Li H, Liu Z. Carcinosarcoma arising from atypical endometriosis in a cesarean section scar. *Int J Gynecol Cancer*. 2006;16(1):432-5.
22. McCluggage WG, Desai V, Toner PG, Calvert CH. Clear cell adenocarcinoma of the colon arising in endometriosis: A rare variant of primary colonic adenocarcinoma. *J Clin Pathol*. 2001;54(1):76-7.
23. Benoit L, Arnould L, Cheynel N, Diane B, Causeret S, Machado A, et al. Malignant extraovarian endometriosis: A review. *Eur J Surg Oncol*. 2006;32(1):6-11.
24. Potlog-Nahari C, Feldman AL, Stratton P, Koziol DE, Segars J, Merino MJ, et al. CD10 immunohistochemical staining enhances the histological detection of endometriosis. *Fertil Steril*. 2004;82(1):86-92.
25. Matsuo K, Alonsozana ELC, Eno ML, Rosenshein NB, Im DD. Primary peritoneal clear cell adenocarcinoma arising in previous abdominal scar for endometriosis surgery. *Arch Gynecol Obstet*. 2009;280(4):637-41.
26. Pencavel T, Strauss DC, Thomas JM, Hayes AJ. The surgical management of soft tissue tumours arising in the abdominal wall. *Eur J Surg Oncol*. 2010;36(5):489-95.