



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

Mesotelioma multiquístico peritoneal benigno recidivante: abordaje de esta entidad tan poco frecuente



Ricardo Lucas García-Mayor Fernández^{a,*}, María Fernández-González^b,
Alberto López-Rodríguez^a y Rafael Martínez-Almeida Fernández^a

^a Servicio de Cirugía General, Hospital do Salnés, Área de Gestión Integrada Pontevedra-Salnés, Vilagarcía de Arousa (Pontevedra), España

^b Servicio de Urgencias, Complejo Hospitalario Universitario de Orense, Orense, España

Recibido el 4 de febrero de 2015; aceptado el 24 de agosto de 2015

Disponible en Internet el 5 de enero de 2016

PALABRAS CLAVE

Mesotelioma;
Multiquístico;
Recidivante;
Benigno

Resumen

Antecedentes: El mesotelioma multiquístico benigno es un tumor benigno infrecuente, que deriva del mesotelio peritoneal.

El objetivo del trabajo es presentar un caso clínico de esta rara entidad y realizar una revisión de la presentación clínica, diagnóstico y tratamiento.

Caso clínico: Paciente mujer de 22 años, que se diagnostica de mesotelioma multiquístico tras una resección urgente de una tumoración intraabdominal, en el contexto de un dolor abdominal agudo. En el seguimiento posterior presentó una recidiva de la lesión a los 2 años, que se trató mediante resección.

Conclusión: El mesotelioma multiquístico benigno es un tumor benigno cuya etiología es desconocida, la manifestación clínica es inespecífica. El tratamiento más eficaz es quirúrgico, aunque presenta gran tendencia a la recidiva local.

© 2015 Academia Mexicana de Cirugía A.C. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

KEYWORDS

Mesothelioma;
Multicystic;
Recurrent;
Benign

Recurrent benign multicystic peritoneal mesothelioma: Approach to this rare condition

Abstract

Background: Benign multicystic mesothelioma is a rare benign tumour derived from the peritoneal mesothelium.

* Autor para correspondencia: c/ Conde de Torrecedeira No. 50, piso 1º E, C.P. 36202 Vigo (Pontevedra), España.
Teléfono: +34 62629 9612.

Correo electrónico: lucasgarciamayor@gmail.com (R.L. García-Mayor Fernández).

The aim of this paper is to present a case of this rare tumour and review the clinical features, diagnosis and treatment of this disease.

Clinical case: The case is presented of a 22-year-old female diagnosed with multicystic mesothelioma after an urgent resection of intra-abdominal tumour in the context of acute abdominal pain. In the subsequent follow-up, the patient had a recurrence of the lesion, and at 2 years was treated by further resection.

Conclusions: Benign multicystic mesothelioma is a benign tumour of unknown origin, and with a non-specific clinical manifestation. The most effective treatment is surgical, although there is a high tendency to local recurrence.

© 2015 Academia Mexicana de Cirugía A.C. Published by Masson Doyma México S.A. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Antecedentes

El mesotelioma multiquístico benigno es un tumor benigno poco frecuente, caracterizado por la formación de masas quísticas multiloculares intraabdominales, y cuya estructura principal deriva del mesotelio peritoneal. Es una enfermedad rara, descrita por primera vez en 1979 por los doctores Mennemeyer y Smith, quienes determinaron su origen mesotelial¹.

Es una entidad cuya etiología es desconocida y la forma más frecuente de presentación es en mujeres en edad fértil.

La manifestación clínica es inespecífica, en la que es habitual el dolor abdominal y la presencia de una masa palpable²⁻⁴. En otras ocasiones se presenta como un hallazgo incidental durante la realización de una prueba diagnóstica o durante una intervención quirúrgica.

El tratamiento más eficaz es quirúrgico, aunque presenta gran tendencia a la recidiva local^{2,4}.

El objetivo de este trabajo es presentar un caso clínico de esta entidad poco frecuente y realizar una revisión de la presentación clínica, del diagnóstico y del tratamiento de esta dolencia.

Caso clínico

Mujer de 22 años, sin antecedentes médico-quirúrgicos de interés, que acude a urgencias por un cuadro de dolor abdominal agudo, en fosa iliaca derecha. No refiere otra sintomatología asociada. La exploración física muestra dolor abdominal y defensa con sensación de efecto de masa a nivel de fosa iliaca derecha. Tiene un estudio de laboratorio sin alteraciones. Se realiza una ecografía abdominal, que se complementa con una tomografía computada (TC) abdominopélvica para su mejor evaluación y cuya descripción radiológica es que en región retrocecal se observa un engrosamiento de fascias derechas lateroconal y pararenal posterior y colección encapsulada con realce periférico de 36.7 × 92.2 mm, que desplaza medialmente al ciego, hallazgos que son sugestivos de absceso por apendicitis retrocecal (fig. 1).

Ante la sospecha de un cuadro de apendicitis complicada, se procedió a realizar una laparoscopia exploradora urgente. Se utilizó un trocar de 12 mm umbilical, de 10 mm suprapúbico y de 5 mm en fosa iliaca izquierda. Los hallazgos



Figura 1 Tomografía computada abdominal urgente con contraste intravenoso: con colección retrocecal encapsulada de 36.7 × 92.2 mm.

operatorios muestran una tumoración quística por debajo del peritoneo lateral del colon derecho, adyacente al ciego. Presentó un apéndice cecal normal con disposición pélvica; útero y anexos sin alteraciones visibles.

Se disecó la tumoración quística de la pared lateral del colon derecho, apreciándose que tiene un plano de clivaje respecto al colon y se extrae pieza completa en bolsa. Se realiza apendicectomía y se deja colocado un drenaje en lecho quirúrgico.

En el postoperatorio, la evolución clínica es favorable y es dada de alta hospitalaria al tercer día postoperatorio.

El seguimiento en la consulta se realizó tras 3 semanas con resultado anatomopatológico que reportó: fragmento irregular de aspecto poliquístico de 4 cm de diámetro,



Figura 2 Tomografía computada de control (realizada 2 años después de la resección del tumor), donde se aprecia una lesión de 33.5 mm sospechosa de recidiva tumoral.

con hallazgos compatibles con mesotelioma multiquístico benigno, con amplias áreas de recubrimiento mesotelial y con depósitos de material fibrinohemático, y focos de extravasación hemática. El apéndice cecal, sin inflamación asociada.

Se realizó una pancolonoscopia que la describen como normal.

Se realizó una TC abdominopélvica, sin apreciarse signos de recidiva y se plantea un seguimiento inicial por TC abdominopélvica anual.

El control anual por TC no demuestra recidiva. Sin embargo, el control tomográfico anual posterior (2 años tras la exéresis de la tumoración) señaló que, en contacto con la pared posterior del colon ascendente, se identificó una pequeña estructura ovoidea, de atenuación líquida, de aproximadamente 33.5 mm de diámetro, sugestiva de recidiva tumoral (fig. 2).

Se programa para intervención quirúrgica por vía laparoscópica y, en los hallazgos operatorios, se apreció tumoración quística sobre parietocólico derecho, extracolónica. Se realizó la resección de la tumoración y se extrajo de forma completa en bolsa.

El postoperatorio transcurre sin complicaciones y es egresada del hospital a los 3 días.

Se realizó seguimiento en consulta externa. Tras 3 semanas posquirúrgicas con resultado anatomopatológico se dispone de descripción macroscópica: fragmento de tejido adiposo laminar, que mide 3 × 3 cm, que presenta un nódulo elevado de 2 cm de diámetro máximo, que al corte es multiloculado. La descripción microscópica indica masa formada por múltiples quistes revestidos por una monocapa de células cúbicas o aplanadas, de núcleos basales, y cuya pared

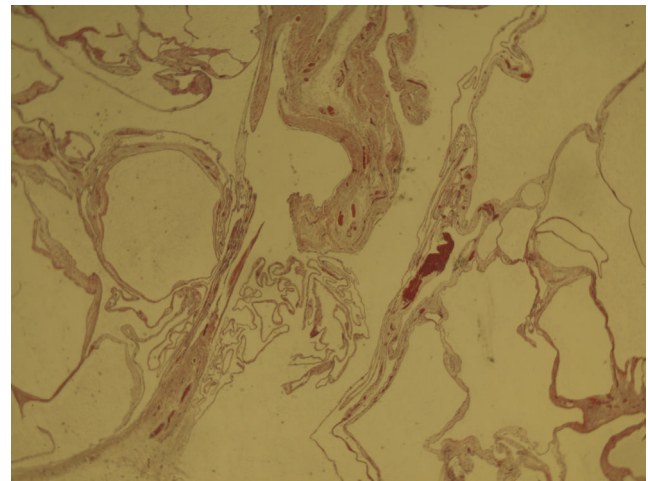


Figura 3 Fotomicrografía: múltiples quistes revestidos por una monocapa de células cúbicas o aplanadas, de núcleos basales, y cuya pared está constituida por un estroma fibroadiposo con congestión vascular leve y focales cambios inflamatorios crónicos e inespecíficos (hematoxilina-eosina x10).

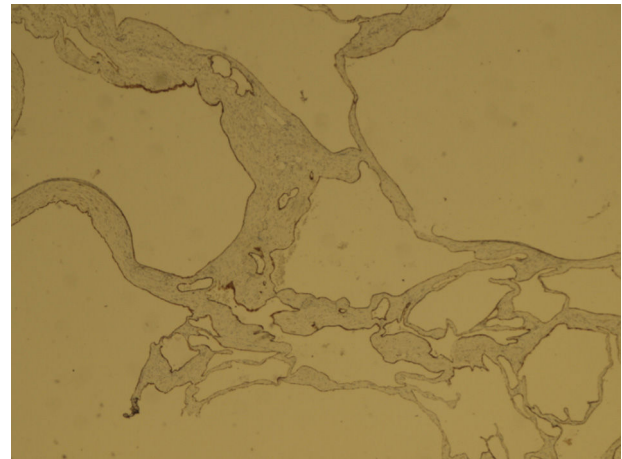


Figura 4 Inmunohistoquímica que muestra expresión constante de calretinina todo a lo largo del revestimiento de los quistes (calretinina x10).

está constituida por un estroma fibroadiposo con congestión vascular leve y focales, con cambios inflamatorios crónicos e inespecíficos (fig. 3). No hay proliferaciones celulares ni atipias. Las células de revestimiento de las cavidades quísticas presentan un inmunofenotipo positivo para citoqueratinas AE1-E3 y para calretinina (fig. 4), que demuestran la estirpe primaria mesotelial de la tumoración. Conclusión: mesotelioma benigno multiquístico peritoneal recidivado.

Discusión

El mesotelioma quístico peritoneal es una lesión de etiología desconocida. Fue descrito por primera vez en 1979 por los doctores Mennemeyer y Smith¹, quienes determinaron su origen mesotelial por microscopio electrónico, ya que anteriormente eran etiquetados como linfangiomas quísticos. Algunos autores defienden que se trata de un tumor neoplásico mesotelial benigno, mientras que otros

lo interpretan como una lesión peritoneal secundaria a inflamaciones intraabdominales, cirugía abdominal previa, endometriosis y enfermedad inflamatoria pélvica².

Se presenta fundamentalmente en mujeres en edad fértil, lo que señala la posible relevancia de las hormonas sexuales femeninas en la etiopatogenia de esta dolencia³.

Los datos clínicos son inespecíficos y es habitual el dolor abdominal, masa palpable²⁻⁴ y síntomas debidos a la compresión de los órganos abdominales. En muchos casos es asintomática y es un hallazgo incidental en el curso de una prueba radiológica o de una intervención quirúrgica^{3,4}.

La aproximación diagnóstica se realiza con la ecografía y la TC abdomino-pélvica, en la que se aprecian tumoraciones quísticas multiloculadas, no dependientes de los órganos abdominales. La laparoscopia sigue siendo la herramienta de diagnóstico más precisa⁴. En nuestro caso la laparoscopia exploradora inicial evidenció una lesión multiquística extracolónica con apéndice normal, mientras que las pruebas radiológicas orientaban a una enfermedad apendicular complicada.

El diagnóstico diferencial del mesotelioma quístico peritoneal se estableció con lesiones benignas, como: linfangiomas quísticos, endosalpingiosis, endometriosis, quistes müllerianos retroperitoneales y tumores adenomatoideos quísticos²⁻⁴. Las malignas como: mesoteliomas malignos y carcinomas ováricos de células claras.

Macroscópicamente, el aspecto de la lesión es típico, con múltiples quistes de diversos tamaños, con contenido seroso o serosanguinolento dispersos por la superficie peritoneal.

Microscópicamente, los quistes se caracterizan por estar revestidos de células mesoteliales con estroma vascular, con infiltrado inflamatorio agudo y crónico, y áreas de metaplasia escamosa. Mediante técnicas de inmunohistoquímica, las células mesoteliales expresan positividad para la calretinina y, en ocasiones, presentan receptores para estrógenos y progesterona³.

Se ha comunicado un caso de malignización de un mesotelioma quístico peritoneal recidivante⁵.

El único tratamiento eficaz es el tratamiento quirúrgico, mediante la extirpación completa de las lesiones y es indispensable el seguimiento posterior, debido a que se ha comunicado índices de recidiva de hasta el 50%². Por este motivo, se han ensayado nuevos tratamientos adyuvantes, como la esclerosis peritoneal pélvica, con una solución de tetraciclinas al 1%³, la perfusión peritoneal hipertérmica con cisplatino⁶ e incluso la peritonectomía asociada a quimioterapia intraperitoneal⁷. La detección de receptores hormonales para estrógenos y progesterona en algunos tumores² ha llevado a algunos autores a utilizar terapia hormonal con agonistas de la hormona liberadora de gonadotropina y agentes antiestrogénicos, como el tamoxifeno⁸, en el tratamiento y la prevención de las recidivas de la enfermedad.

Conclusión

Tras revisar la literatura respecto a esta entidad tan poco frecuente, se concluye que el tratamiento de elección es quirúrgico; a través de extirpar todas las lesiones visibles

de forma completa y, solo en caso de detectarse recidivas múltiples, estaría indicada la esclerosis con tetraciclinas y la terapia hormonal. La infusión de agentes quimioterápicos intraperitoneales y la peritonectomía estarían indicadas en los casos de multirrecidiva más graves.

En cuanto al pronóstico, ni el tamaño de los quistes ni la extensión de la lesión parecen influir en este². El problema fundamental es la recidiva, que según la bibliografía revisada puede llegar hasta el 50%². Solo se ha comunicado una transformación maligna⁵, en un caso con múltiples recidivas.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Menemeyer R, Smith M. Multicystic, peritoneal mesothelioma. A report with electron microscopy of a case mimicking intra-abdominal cystic hygroma (lymphangioma). *Cancer*. 1979;44(2):692-8.
2. Ross MJ, Welch WR, Scully RE. Multilocular peritoneal inclusion cysts (so-called cystic mesotheliomas). *Cancer*. 1989;64(6):1336-46.
3. Sawh RN, Malpica A, Deavers MT, Liu J, Silva EG. Benign cystic mesothelioma of the peritoneum: A clinicopathologic study of 17 cases and immunohistochemical analysis of estrogen and progesterone receptor status. *Hum Pathol*. 2003;34(4):369-74.
4. Elboudhaddouti H, Bouassria A, Mouaqit O, Benjelloun EB, Ousaden A, Mazaz K, et al. Benign cystic mesothelioma of the peritoneum: A case report and literature review. *World J Emerg Surg*. 2013;8:43.
5. González-Moreno S, Yan H, Alcorn KW, Sugarbaker PH. Malignant transformation of benign cystic mesothelioma of the peritoneum. *J Surg Oncol*. 2002;79(4):243-51.
6. Baratti D, Kusamura S, Sironi A, Cabras A, Fumagalli L, Laterza B, et al. Multicystic peritoneal mesothelioma treated by surgical cytoreduction and hyperthermic intra peritoneal chemotherapy (HIPEC). *In Vivo*. 2008;22(1):153-7.
7. Sugarbaker PH, Acherman YIZ, Gonzalez-Moreno S, Ortega-Perez G, Stuart A, Marchettini DP, et al. Diagnosis and treatment of peritoneal mesothelioma: The Washington Cancer Institute experience. *Semin Oncol*. 2002;29(1):51-61.
8. Letterie GS, Yon JL. The antiestrogen tamoxifen in the treatment of recurrent benign cystic mesothelioma. *Gynecol Oncol*. 1998;70(1):131-3.