

8 mg/kg frente a 4 mg/kg⁷. Del mismo modo, el riesgo de perforación intestinal es mayor en comparación con el resto de fármacos biológicos moduladores de enfermedad^{3,4,8,9}. Estas perforaciones aparecen en los primeros 12 meses tras el tratamiento y no se incrementan con el tiempo^{5,9}, siendo siempre más frecuentes en los pacientes que han recibido corticoides^{5,6}. Una posible explicación podría ser el papel en la función de barrera intestinal de la IL-6³, así como una menor intensidad en la respuesta inflamatoria inmediata⁵. Finalmente, señalar que la mortalidad tras perforación en estos casos puede llegar al 46%³, hecho que agravaría notablemente el pronóstico, ya de por sí incierto, de los pacientes con infección por COVID-19¹⁰.

BIBLIOGRAFÍA

- Kim J, Thomsen T, Sell N, Goldsmith AJ. American Journal of Emergency Medicine Abdominal and testicular pain?: An atypical presentation of COVID-19. *Am J Emerg Med*. 2020. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajem.2020.03.052>.
- Kremer JM, Blanco R, Brzosko M, Burgos-Vargas R, Halland A, Vernon E, et al. Tocilizumab inhibits structural joint damage in rheumatoid arthritis patients with inadequate responses to methotrexate: Results from the double-blind treatment phase of a randomized placebo-controlled trial of tocilizumab safety and prevention of structural joint damage at one year. *Arthritis Rheum*. 2011;63:609-21.
- Strangfeld A, Richter A, Siegmund B, Herzer P, Rockwitz K, Demary W, et al. Risk for lower intestinal perforations in patients with rheumatoid arthritis treated with tocilizumab in comparison to treatment with other biologic or conventional synthetic DMARDs. *Ann Rheum Dis*. 2017;76:504-10.
- Xie F, Yun H, Bernatsky S, Curtis JR. Risk for Gastrointestinal Perforation among Rheumatoid Arthritis Patients receiving Tofacitinib Tocilizumab, or other Biologics. *Arthritis Rheumatol*. 2016;68:2612-7.
- Yamamoto K, Goto H, Hirao K, Nakajima A, Origasa H, Tanaka K, et al. Longterm Safety of Tocilizumab: Results from 3 Years of Followup Postmarketing Surveillance of 5573 Patients with Rheumatoid Arthritis in Japan. *J Rheumatol*. 2015;42:1368-75.
- Schiff MH, Kremer JM, Jahreis A, Vernon E, Isaacs JD, Vollenhoven RF. Van. Integrated safety in tocilizumab clinical trials. *Arthritis Res Ther*. 2011;13:R141.
- Emery P, Keystone E, Tony HP, Cantagrel A, Vollenhoven Van R, Sanchez A, et al. IL-6 receptor inhibition with tocilizumab improves treatment outcomes in patients with rheumatoid arthritis refractory to anti-tumour necrosis factor biologicals: Results from a 24-week multicentre randomised placebo-controlled trial. *Ann Rheum Dis*. 2008;67:1516-23.
- Sepriano A, Kerschbaumer A, Smolen JS, van Der Heijde D, Dougados M, van Vollenhoven R, et al. Safety of synthetic and biological DMARDs?: A systematic literature review informing the 2019 update of the EULAR recommendations for the management of rheumatoid arthritis. *Ann Rheum Dis*. 2020. <http://dx.doi.org/10.1136/annrheumdis-2019-216653>.
- Monemi S, Berber E, Sarsour K, Wang J. Incidence of Gastrointestinal Perforations in Patients with Rheumatoid Arthritis Treated with Tocilizumab from Clinical Trial Postmarketing, and Real-World Data Sources. *Rheumatol Ther*. 2016;3:337-52.
- Aminian A, Safari S, Razeghian-Jahromi A, Ghorbani M, Delaney CP. COVID-19 Outbreak and Surgical Practice: Unexpected Fatality in Perioperative Period. *Ann Surg*. 2020. <http://dx.doi.org/10.1097/SLA.0000000000003925>.

Paula González Guardiola^{a,*}, Jose Ángel Díez Ares^{a,b},
Nuria Peris Tomás^{a,b}, Juan Carlos Sebastián Tomás^a
y Sergio Navarro Martínez^a

^aHospital Doctor Peset, Valencia, España

^bUnidad de Cirugía Bariátrica, Hospital Doctor Peset, Valencia, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: p.gonzalez.g@gmail.com
(P. González Guardiola).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2020.04.030>
0009-739X/

© 2020 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Quiste broncogénico retrorrectal

Retrorectal Broncogenic Cyst



Los quistes broncogénicos se desarrollan entre la tercera y séptima semana de vida intrauterina, y se deben a anomalías del desarrollo embriológico del intestino primitivo y del árbol traqueobronquial. Su localización típica es mediastínica, siendo los retroperitoneales muy infrecuentes y los situados de forma retrorrectal excepcionales¹.

Presentamos el caso de una paciente de 32 años que ingresó por dolor abdominal hipogástrico y en fosa ilíaca derecha de 6 meses de evolución cuya intensidad fue incrementando en el último mes. No asoció fiebre ni otra sintomatología. A la exploración la paciente presentó molestias en hipogastrio y fosa ilíaca derecha, sin irritación peritoneal y no se palpaban masas.



Figura 1 – Proyecciones sagital y axial, donde se objetiva masa quística (marcado con flecha), y su relación con el recto y los músculos elevadores del ano.

Se realizó una analítica sin hallazgos de interés y una tomografía abdominal en la que se objetivó una masa quística septada de 10×6 cm pararectal derecha. Ante los hallazgos se ingresó a la paciente y se completó el estudio con una resonancia magnética en la cual se evidenció tumoración quística presacra multiloculada de $10,3 \times 7,8 \times 5,7$ cm de diámetro sugestiva de hamartoma quístico retrorectal o quiste de tailgut (fig. 1).

Dada la posible complicación de esta lesión, la posibilidad de degeneración y la sintomatología de la paciente se realizó una cirugía laparoscópica en la que se objetivó una gran masa quística que se extendía retrorectalmente desde recto medio hasta los músculos elevadores del ano sin depender de ellos. Se llevó a cabo una disección dificultosa de toda la lesión, durante la cual se produjo una lesión incidental del recto de 1,5 cm la cual se suturó endoanalmente. Finalmente se extrajo la lesión quística y se realizó una ileostomía de protección.

La anatomía patológica reveló una lesión cavitaria tapizada por epitelio de tipo respiratorio (cilíndrico pseudoestratificado ciliado con células caliciformes), hallazgos compatibles con quiste broncogénico.

La paciente fue dada de alta al sexto día postoperatorio y actualmente se encuentra en espera para cierre estomal.

Los quistes broncogénicos se producen por un desarrollo anormal del divertículo ventral del árbol traqueobronquial y se localizan habitualmente en el parénquima pulmonar o mediastino².

Cuando se separan totalmente del árbol traqueobronquial pueden migrar a localizaciones atípicas, siendo la retroperitoneal el 0,03%² de los casos. A este nivel, la localización peripancreática será la más frecuente, el 28% de los casos³, siendo la retrorectal muy inusual.

Su incidencia es similar en ambos sexos, la edad media se encuentra entorno a los 40 años, y el tamaño medio del quiste es de 6 cm⁴.

La mayor parte de los casos son diagnosticados de forma incidental¹, sin embargo, estos pueden sangrar, perforarse, comprimir estructuras adyacentes por su crecimiento e incluso malignizar⁵.

La tomografía y la resonancia magnética serán las pruebas fundamentales para su diagnóstico, pero, en caso de encontrar estas lesiones a nivel biliar o pancreático es recomendable la realización de una eco-endoscopia y punción de la lesión³.

El diagnóstico diferencial deberá realizarse entre una variedad de entidades como los hamartomas quísticos, el teratoma sacrococcígeo, el meningocele sacro anterior, los quistes de duplicación rectal y los leiomiomas rectales⁶.

El tratamiento será quirúrgico para el control de los síntomas y evitar el riesgo de malignización³. El abordaje quirúrgico podrá ser vía sacrococcígea recomendado en lesiones localizadas por debajo de S4, transanal en las de tamaño inferior a 4 cm o abdominal en lesiones de gran tamaño y por encima de S3⁷. Si bien son los 2 primeros los más promulgados, el abordaje abdominal laparoscópico también ha sido descrito^{3,8}.

El análisis histológico mostrará cartílago y glándulas bronquiales con contenido seromucoso⁹.

En el caso expuesto, el diagnóstico inicial por imagen fue de hamartoma quístico, un tumor benigno muy infrecuente. Para evitar el riesgo de diseminación en caso de tratarse de enfermedad maligna se decidió no realizar eco-punción de la lesión. Si bien es cierto que el abordaje laparoscópico ha sido poco descrito en la literatura, elegimos este ya que se trataba de una lesión grande localizada por encima de los músculos elevadores del ano en una paciente joven en la que no queríamos alterar la musculatura perineal.

Consideramos que, conocer una enfermedad rara, en una localización excepcional y con riesgo de malignización, así como la experiencia en el abordaje laparoscópico de esta es importante para cirujanos colorrectales.

BIBLIOGRAFÍA

1. Pasquer A, Djeudji F, Hervieu V, Rabeyrin M, Barth X. A rare retrorectal presentation of a bronchogenic cyst: A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2016;24:112-4. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijscr.2016.05.028>.

2. Brient C, Muller C, Cassagneau P, Taieb D, Sebag F, Henry JR, et al. Kyste bronchogénique rétroperitoneal. *J Chir Visc.* 2012;149:361-3.
3. Runge T, Blank A, Schäfer SC, Candinas D, Gloor B, Angst E. A Retroperitoneal Bronchogenic Cyst Mimicking a Pancreatic or Adrenal Mass. *Case Rep Gastroenterol.* 2013;7:428-32. <http://dx.doi.org/10.1159/000355879>.
4. Dua KS, Vijayapal AS, Kengis J, Shidham VB. Ciliated foregut cyst of the pancreas: Preoperative diagnosis using endoscopic ultrasound guided fine needle aspiration cytology—a case report with a review of the literature. *Cytojournal.* 2009;6:22. <http://dx.doi.org/10.4103/1742-6413.56362>.
5. Goh BK, Chan HS, Wong WK. A rare case of “giant” right-sided retroperitoneal bronchogenic cyst. *Dig Dis Sci.* 2004;49:1491-2.
6. Cai Y, Guo Z, Cai Q, Dai S, Gao W, Niu Y, et al. Bronchogenic cysts in retroperitoneal region. *Abdom Imaging.* 2013;38:211-4. <http://dx.doi.org/10.1159/000355879>.
7. Pidal MJ, Eisenstat TE, Rubin RJ, Salvati EP. Presacral cysts: Transrectal excision in select patients. *Am Surg.* 1999;65:112-5.
8. Díaz Nieto R, Naranjo Torres A, Gomez Alvarez M, Ruiz Rabelo JF, Pérez Manrique MC, Ciria Bru R, et al. Intraabdominal bronchogenic cyst. *J Gastrointest Surg.* 2010;14:756-8. <http://dx.doi.org/10.1007/s11605-009-0932-5>.
9. Woon CS, Pambuccian SE, Lai R, Jessurun J, Woon CS, Pambuccian SE, et al. Ciliated foregut cyst of pancreas:

Cytologic findings on endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol.* 2007;35:433-8. <http://dx.doi.org/10.1002/dc.20659>.

Ángel García-Romera*, Carlota Tuñón-Féquant, Beatriz Díaz-Pérez, Alberto Bravo-Gutiérrez y Antonio Alarcó-Hernández

Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Universitario de Canarias, La Laguna, Santa Cruz de Tenerife, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: garcia.romera1988@gmail.com (Á. García-Romera).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2020.04.026>
0009-739X/

© 2020 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Tumores neuroblásticos en el adulto

Neuroblastic tumors in adults



Los tumores neuroblásticos son neoplasias del sistema nervioso simpático originadas a partir de células simpaticoadrenérgicas primitivas formadas en la cresta neural durante el desarrollo embrionario. Son de presentación casi exclusiva en niños, siendo muy raros y de mal pronóstico en el adulto. La localización de estos tumores suele ser intraabdominal, generalmente suprarrenal y siempre que sea posible, su tratamiento es quirúrgico¹. Se presenta el caso de un tumor neuroblástico diagnosticado en un adulto.

Varón de 22 años sin antecedentes personales de interés que se realiza ecografía abdominal en estudio de dolor lumbar leve, inespecífico y autolimitado, con dudas de que tuviera un origen mecánico y/o de vías urinarias. Como hallazgo incidental en dicha ecografía se observa una masa retroperitoneal derecha de gran tamaño. A la exploración, se palpa una masa que ocupa todo el hemiabdomen derecho, con molestias locales leves. El paciente no presentaba clínica obstructiva intestinal, urológica, fiebre ni otra sintomatología. En la analítica presenta un leve aumento de la proteína C reactiva (PCR) (1,40 mg/dL) y una velocidad de sedimentación de 22 mm/h, siendo el resto de parámetros normales. Ingresa para estudio, realizándose una tomografía computarizada (TC) donde se aprecia una voluminosa masa que ocupa hipocondrio y flanco derechos, de 15 cm x 20 cm x 29 cm, que impresiona de tener origen retroperitoneal (proveniente de la glándula suprarrenal como primera posibili-

dad), sin datos de extensión adenopática ni metastásica toracoabdominal (fig. 1 a). También se realiza determinación de catecolaminas/metanefrinas en orina, que son normales. Tras el estudio, se decide practicar una intervención quirúrgica diagnóstico-terapéutica. Mediante laparotomía subcostal bilateral se encuentra una gran tumoración de unos 35 cm x 20 cm que parece originarse en la glándula suprarrenal derecha. Se realizó exéresis de la misma, previa identificación, ligadura y sección de arteria y vena suprarrenales inferiores derechas (fig. 1 b). El estudio histopatológico de la pieza descubre un ganglioneuroblastoma subtipo entremezclado/nodular pobremente diferenciado, de origen suprarrenal, con margen de resección R1. Posteriormente, se le da de alta al paciente a los tres días de la intervención, con controles ambulatorios por parte de Cirugía y Oncología. En rastreo gammagráfico con TC 123 I-MIBG postoperatorio no se evidencia extensión a distancia. Se completa tratamiento con radioterapia, 21 Gy (14 x 1,5 Gy) y tras 22 meses de seguimiento, se encuentra asintomático y sin recaída.

Para valorar la frecuencia del tumor neuroblástico del adulto, se realizó una revisión de la literatura en PubMed, actualizada al 26 de junio de 2019, con la siguiente estrategia de búsqueda: Ganglioneuroblastoma y adulto. Se encontraron 22 casos de neuroblastoma del adulto en la bibliografía actual^{2,3}, de los que un 72% eran hombres. La mediana de