

CASOS CLÍNICOS

Síndrome de Meigs y pseudo-Meigs

E.M. Losa^a, M. Villar^b, A. Pascual^c, T. Gómez^a y G. González de Merlo^a

^aServicio de Obstetricia y Ginecología. Complejo Hospitalario Universitario de Albacete. Albacete.

^bServicio de Radiología. Complejo Hospitalario Universitario de Albacete. Albacete.

^cServicio de Anatomía Patológica. Complejo Hospitalario Universitario de Albacete. Albacete. España.

ABSTRACT

Meigs' syndrome consists of a benign ovarian «fibroma type» tumor in association with ascites and hydrothorax that disappear after tumoral resection. CA 125 levels are sometimes elevated but return to normal after surgery. The same characteristics but with other types of tumors, whether benign or malignant, constitute pseudo-Meigs' syndrome. This syndrome has been known for many years, but its pathophysiology is unclear. The present article aims to provide an up-to-date review of the literature published on the topic. We also report two cases, one of Meigs' syndrome associated with ovarian cellular fibroma and another of pseudo-Meigs' syndrome associated with mucinous carcinoma of the ovary and endometrium.

INTRODUCCIÓN

En 1937 Meigs y Cass presentaban 7 casos de fibromas ováricos con ascitis e hidrotórax cuyos signos y síntomas se resolvían con la extirpación del tumor. Aunque previamente, en 1934, Meigs ya había descrito 3 casos similares en su libro *Tumors of the female pelvic organs*¹⁻³, fueron Rhoads y Terrell los que en 1937, tras comunicar otro caso, denominaron a esta patología «síndrome de Meigs».

Ya en el siglo XIX distintos autores describieron la asociación de tumores de ovario con ascitis e hidrotórax^{2,3}. Las primeras aportaciones fueron la de Spigelberg en 1866 y la de Cullinworth en 1879, y en ambos casos se realizó el diagnóstico de fibroma ovárico en la autopsia^{2,3}. Posteriormente, Demons en 1887 observó que 9 de 50 pacientes con quiste de ovario, ascitis e hidrotórax se curaron tras la resección del quiste^{2,3}. En 1888 Pascale también comunicó que 3 de 21 pacientes con quistes de ovario tenían ascitis y derrame pleural

que se resolvieron tras la intervención^{2,3}. El mismo año, Terrier informó de una mujer con fibroma bilateral de ovario, ascitis e hidrotórax, pero no se sabe si la paciente se recuperó tras la cirugía ni si el resultado histológico fue de benignidad^{2,3}. Tait en 1892 y Demons en 1900, 1902 y 1903 publicaron los 4 primeros casos del síndrome con todas sus características, y hubo nuevas aportaciones a cargo de Hoon en 1923, de Leo en 1926 y de Salmon en 1934^{2,3}. En 1948 el doctor Funck-Brentano consideró que, debido a la importante contribución de Demons, su nombre debería preceder al de Meigs en la denominación del síndrome, de ahí que en la bibliografía francesa y rusa sea conocido como síndrome de Demons-Meigs³.

Meigs² realizó en 1954 una revisión de las publicaciones sobre tumores abdominales con ascitis e hidrotórax y pensó que había que redefinir el síndrome y limitarlo para el tipo de tumores que fueron descritos inicialmente, y por tanto se trataría de tumores de ovario benignos fibrosos, sólidos y duros que incluían fibromas, tecomas, tumores de células de la granulosa y tumor de Brenner; las otras características del síndrome serían la ascitis y el derrame pleural, que se resolverían tras la extirpación del tumor. Definió también el «falso síndrome de Meigs» como la asociación de los mismos hallazgos con otros tumores de ovario benignos como teratomas del tipo estruma, quistes, papiloma de trompa, con tumores malignos (cistoadenoma papilar, tumor de Krukenberg, carcinoma, fibrosarcoma) e incluso con leiomiomas uterinos.

En este artículo presentamos 2 casos clínicos: un síndrome de Meigs asociado a fibroma celular y un segundo caso de falso síndrome de Meigs en una paciente con carcinoma mucinoso sincrónico de ovario (bilateral) y de endometrio.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1: síndrome de Meigs

Paciente de 58 años que acudió a urgencias por presentar disnea de esfuerzo en progresión desde ha-

Aceptado para su publicación el 18 de abril de 2005.



Fig. 1. Caso 1 (radiografía de tórax). Derrame pleural derecho.

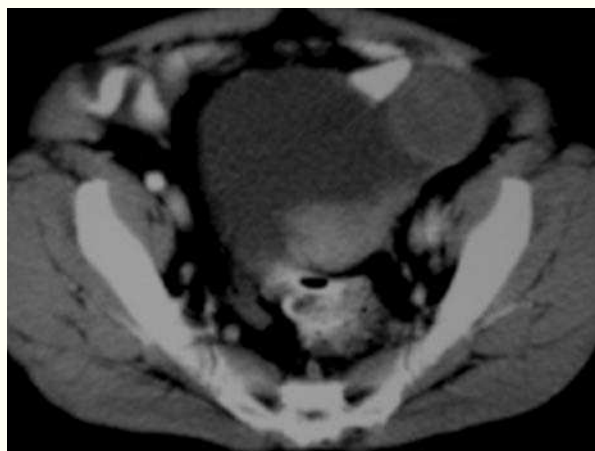


Fig. 2. Caso 1 (tomografía computarizada). Tumoración pélvica heterogénea de 13 x 9 cm, dependiente del anejo izquierdo.

cía 2 semanas, coincidiendo con síndrome catarral con tos, expectoración y dolor pleurítico. Como antecedentes personales destacaba hipertensión arterial en tratamiento, consumo de 10 cigarrillos/día e intolerancia al ácido acetilsalicílico, y como historia obstétrico-ginecológica tenía 5 embarazos, con 4 partos normales y 1 aborto; la menopausia se produjo a los 56 años y no se había realizado revisiones en los últimos años, salvo una mamografía hacía 6 meses, que resultó normal.

En la exploración física presentaba buen estado general, con presión arterial de 150/95 mmHg y apirética; en la auscultación pulmonar destacaba una disminución del murmullo vesicular en la base derecha. El



Fig. 3. Caso 1 (ecografía transvaginal). Tumoración anexial izquierda ecomixta de 114 x 93 x 80 mm.

hemograma, la bioquímica y las pruebas de coagulación fueron normales, y la gasometría arterial mostró: pO_2 , 68 mmHg; pCO_2 , 42 mmHg; bicarbonato, 28 mEq/l, y pH, 7,44. En la radiografía de tórax se encontró derrame pleural derecho (fig. 1), que se diagnosticó mediante toracocentesis como exudado linfocitario, con cultivos microbiológicos negativos. Fue ingresada en el servicio de neumología y se solicitaron marcadores tumorales (AFP, CEA, CA 15,3, CA 19,9, SCC, β_2 microglobulina y CA 125), que fueron normales, salvo un CA 125 de 175 U/ml. En la tomografía computarizada (TC) se evidenció un importante derrame pleural derecho, una pequeña cantidad de líquido libre intraperitoneal y, en fosa ilíaca izquierda, tumoración de contornos polilobulados de 13 x 9 cm, heterogénea con áreas centrales hipodensas, dependiendo del ovario izquierdo, sospechoso de cistoadenocarcinoma (fig. 2). La paciente presentó mejoría clínica de la disnea y, ante la sospecha de carcinoma de ovario, se procedió al traslado a la planta de ginecología para continuar su estudio. Una nueva toracocentesis diagnóstica mostró citología negativa para células tumorales malignas y el estudio del tubo digestivo (gastroscopia y colonoscopia) no evidenció lesiones sospechosas. La ecografía ginecológica (fig. 3) demostró la presencia de una tumoración anexial izquierda de 114 x 93 x 80 mm, irregular, ecomixta, de aspecto sólido, con zonas anecoicas y sin aumento de vascularización, y líquido libre en cantidad moderada.

En la laparotomía se encontró una tumoración sólida dependiente de ovario izquierdo de aproximadamente 10 cm de diámetro y escasa cantidad de ascitis cuyo estudio citológico resultó negativo para células malignas; el anejo derecho y el útero eran normales.

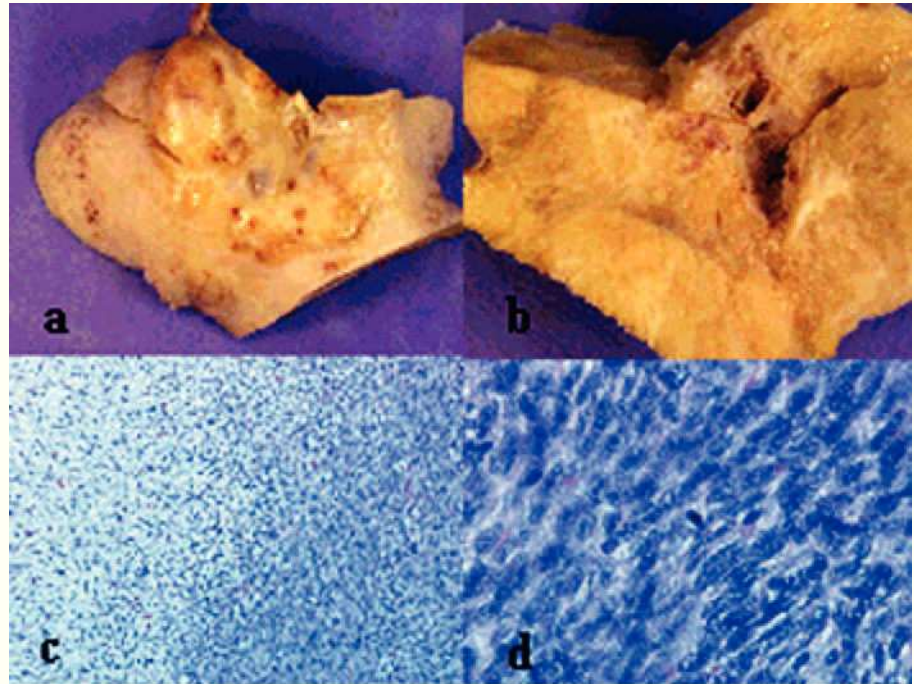


Fig. 4. Caso 1 (anatomía patológica). Tumoración ovárica con superficie externa (a) abollonada y superficie de corte (b) con áreas sólidas y focos de degeneración quística. Proliferación fusocelular (c) con áreas de menor celularidad y edema intersticial (hematoxilina-eosina, aproximadamente $\times 100$) y zonas más densamente celulares con presencia de mitosis (d) (hematoxilina-eosina, aproximadamente $\times 400$).

Se realizó anexectomía izquierda con biopsia intraoperatoria que indicó que se trataba de un fibroma celular.

El postoperatorio evolucionó favorablemente y al cuarto día se procedió al alta, con CA 125 de 140,2 U/ml y radiografía de control que mostraba resolución del derrame pleural. El CA 125 se normalizó al mes de la intervención (9,4 U/ml).

La anatomía patológica (fig. 4) definitiva describía una tumoración de 418 g de peso y $11 \times 11 \times 7$ cm de diámetro, de superficie abollonada y coloración blanquecina, que presentaba al corte áreas sólidas con pequeños focos de degeneración quística. En el estudio microscópico se observaba proliferación de células fusiformes dispuestas en haces entrelazados, con leve atipia celular y hasta 3 mitosis por 10 campos de gran aumento.

Caso 2: falso síndrome de Meigs

Mujer de 50 años remitida por el servicio de aparato digestivo por cuadro de 2 semanas de evolución de anorexia, pérdida de peso, palidez mucocutánea y dolor abdominal, y hallazgo en la ecografía abdominal de masa pélvica heterogénea y ascitis; además presentaba tos seca y molestias en costado izquierdo desde hacía 1 mes. Como antecedentes personales

destacaba esquizofrenia en tratamiento, y estaba intervenida de cataratas. La paciente era nuligesta y sin relaciones sexuales.

En la exploración el abdomen era globuloso y estaba a tensión; los genitales externos eran normales y no fue posible visualizar el cérvix ni realizar un tacto vaginal. La ecografía ginecológica mostraba útero de tamaño normal, regular y homogéneo, con endometrio no valorable. Se visualizaba tumoración como de 8 meses de gestación, de paredes gruesas e irregulares, multitabicada y de estructura mixta, con zonas anecoicas y otras sólidas e hiperecogénicas, sin que se comprobara aumento significativo del mapa color (fig. 5). En la radiografía de tórax aparecía un pequeño derrame pleural izquierdo (fig. 6) y en la TC éste era bilateral, aunque más llamativo en el hemitórax izquierdo. Destacaba una masa quística que ocupaba el hemiabdomen inferior y desplazaba estructuras intestinales de aparente origen ovárico (fig. 7). El epilón mayor presentaba infiltración por la tumoración y se visualizaba ascitis en las zonas perihepática y periesplénica y en fondo de saco de Douglas. La mamografía revelaba una imagen nodular en la axila derecha y una adenopatía inespecífica en la axila izquierda. La colonoscopia no pudo completarse por dificultades técnicas, sin que se observaran lesiones hasta la porción media de sigma, y en la gastroscopia



Fig. 5. Caso 2 (ecografía ginecológica). Gran tumoración pélvica ecomixta y de paredes gruesas e irregulares.



Fig. 6. Caso 2 (radiografía de tórax). Derrame pleural izquierdo.

el único hallazgo era una hernia de hiato. En la analítica presentaba anemia moderada (hemoglobina de 8,7 mg/dl y hematocrito del 29,6%) y leucocitosis (13.270/ μ l, con 75,4% de neutrófilos), con pruebas de coagulación normales. En la bioquímica la gamma-glutamilttransferasa era de 95 U/l, la fosfatasa alcalina de 363 U/l, la lactatodeshidrogenasa de 1.037 U/l y el resto, normal. Los marcadores tumorales CEA, CA 19,9, AFP y β -HCG eran normales, y el CA 125 fue de 6.910 U/ml y ascendió hasta 16.064 a los 14 días. Se realizó toracocentesis diagnóstica extrayendo 50 ml de líquido pleural serohemático, que se catalogó de exudado de predominio mononuclear con cultivos microbiológicos negativos, incluyendo micobacterias;



Fig. 7. Caso 2 (tomografía computarizada). Masa quística abdominal, con áreas sólidas y tabiques gruesos, que desplaza las asas intestinales e infiltra el epiplón, junto con la presencia de ascitis.

la citología del mismo fue negativa para células malignas, al igual que la del líquido ascítico.

Ante la sospecha de carcinomatosis peritoneal pero con 2 citologías negativas (líquido pleural y ascítico), se realizó laparotomía exploradora, hallándose una gran tumoración dependiente del ovario izquierdo que ocupaba toda la cavidad abdominal y estaba adherida a las asas del intestino delgado y al ovario derecho con formaciones papilares de aspecto tumoral, ascitis serosa abundante, epiplón mayor con apariencia de infiltración, útero, trompas, peritoneo, recto, sigma e hígado de aspecto normal; se efectuó la disección de la tumoración del epiplón y las asas, produciéndose el desgarrar parcial del asa del delgado, infiltrada por tumoración, por lo cual se realizó resección de fragmento de 10 cm con anastomosis terminoterminal. Tras la anexectomía izquierda, cuya biopsia intraoperatoria informó de carcinoma mucinoso de ovario, se procedió a completar la cirugía con histerectomía y anexectomía restante, linfadenectomía pélvica bilateral y paraaórtica, apendicectomía, omentectomía y biopsias peritoneales de canchales cólicas. La anatomía patológica informó de carcinoma mucinoso bilateral de ovario (fig. 8), estadio FIGO I C y carcinoma mucinoso de endometrio (fig. 9), estadio FIGO II B, con citología peritoneal con infiltrado de neutrófilos y negativa para células malignas, y resto de biopsias sin infiltración tumoral.

El postoperatorio cursó sin complicaciones relevantes, salvo infección urinaria por enterobacteria, y se procedió al alta al decimocuarto día, con CA 125 de 151 U/ml y radiografía de tórax que mostraba resolución del derrame pleural. La ecografía al quinto día

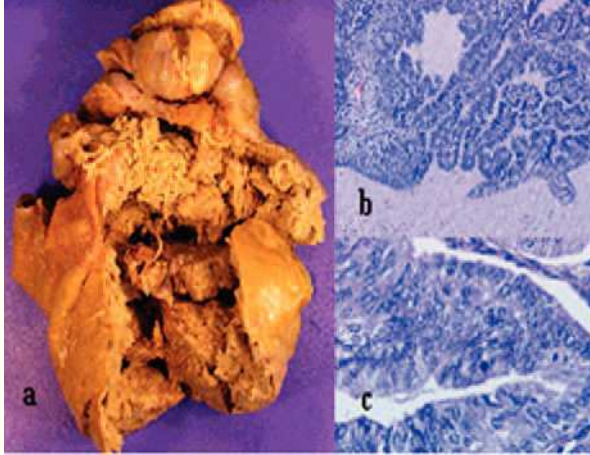


Fig. 8. Caso 2 (anatomía patológica 1). Tumoración ovárica de 3.471 g de peso y 30 × 25 × 11 cm, sólido-quística, con crecimientos papilares, extensas áreas de necrosis y consistencia deleznable (a). Proliferación neoplásica epitelial, con formación de estructuras glandulares revestidas de células cilíndricas con material mucoso en el citoplasma y en las áreas quísticas (b) (hematoxilina-eosina, aproximadamente × 100). Zona moderadamente diferenciada con atipias nucleares y frecuentes mitosis (c) (hematoxilina-eosina, aproximadamente × 400).

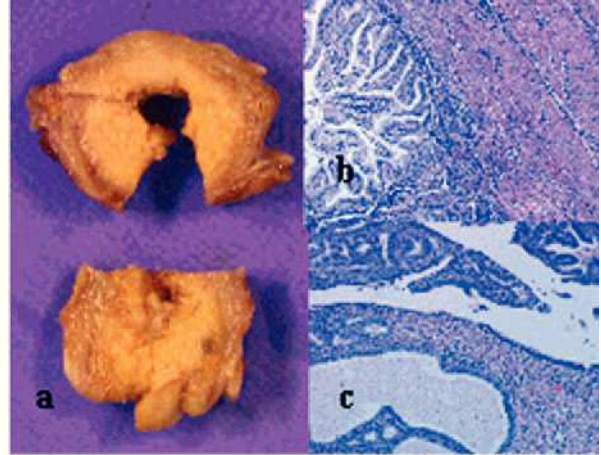


Fig. 9. Caso 2 (anatomía patológica 2). Neoplasia de cuerpo uterino con infiltración del tejido endocervical (a). Infiltración del miometrio (b) y del cérvix (c) por una proliferación neoplásica epitelial mucinosa (hematoxilina-eosina, aproximadamente × 100).

mostraba ascitis moderada, y en la TC de control efectuada a los 40 días, la ascitis aparecía en escasa cantidad. Tras interconsulta con el servicio de oncología se estableció el tratamiento adyuvante con quimioterapia (4 ciclos de carboplatino + taxol). Se consideró a la paciente no apta para radioterapia por agitación psicomotriz y movimientos estereotipados.

DISCUSIÓN

El síndrome de Meigs consiste en la asociación de tumor benigno de ovario (fibroma, tecoma, tumor de células de la granulosa o tumor de Brenner) con ascitis e hidrotórax, que se resuelven tras la extirpación del tumor².

Tras la amplia revisión realizada por Meigs en 1954² (tabla I) han sido numerosas las publicaciones relacionadas con este síndrome⁴⁻³⁶ (tabla II), al igual

TABLA I. Síndrome de Meigs y pseudo-Meigs hasta 1954²

SÍNDROME DE MEIGS				SEUDO-MEIGS	
COMPLETO		INCOMPLETO			
Tait	1892	Spigelberg	1866	Demons	1887 (9 quistes de ovario)
Demons	1900	Cullinworth	1879 (bilateral)	Pascale	1888 (3 quistes de ovario)
Demons	1902	Terrier	1888 (bilateral)	Meigs	1954 (38 casos)
Demons	1903				24 benignos:
Hoon	1923 (2 casos)				– 15 quistes ovario
Leo	1926				– 5 leiomiomas uterinos
Salmon	1934				– 2 teratomas (estruma)
Meigs	1934 (3 casos)				– 1 papiloma trompa
Meigs y Cass	1937 (7 casos)				– 1 masa inflamatoria pélvica (?)
Rhoads y Terrell	1937				14 malignos:
Meigs	1954				– 9 cistoadenomas papilares
	84 casos:				– 1 tumor de Krukenberg
	69 fibromas				– 1 adenocarcinoma de ligamento redondo
	8 tecomas				+ cistoadenoma papilar ovárico
	5 tumores de células de la granulosa				
	1 tumor de Brenner				– 1 carcinoma de ovario
	1 (?)				– 1 cistoadenoma papilar ovárico + adenocarcinoma de útero
					– 1 fibrosarcoma ovárico

(?): sin diagnóstico histológico.

TABLA II. Síndrome de Meigs (después de 1954)

Fibroma	Latta ⁴	1981 (+ quiste dermoide)
	Liu ⁵	1989 (bilateral)
	Bierman ⁶	1990
	Walker ^{7a}	1990 (2 casos de fibroma celular, 1 con fibroma contralateral)
	Le Bouedec ^{8a}	1992
	Linn ^{9a}	1992 (2 casos)
	Stratan ¹⁰	1992
	Novoa-Vargas ¹¹	1994
	Siddiqui ^{12a}	1995 (fibroma celular)
	Timmerman ^{13a}	1995 (2 casos)
	Calleja ^{14a}	1996
	Rouzier ^{15a}	1998
	Abad ^{16a}	1999 (bilateral: 1 fibroma y 1 fibroma celular)
	Santangelo ^{17a}	2000
	Abramov ^{18a}	2001
	Kamiyama ¹⁹	2001 (ovario supernumerario)
	López-Sánchez ^{20a}	2002 (2 casos)
	Morillo ^{21a}	2003
	Nemeth ²²	2003
Tecoma	Hopkins ²³	1986 (embarazada)
	Turan ²⁴	1993
	Tarnowski ²⁵	1998
	Bognoni ^{26a}	1999
	Renaud ^{27a}	2002
	Vieira ^{28a}	2003
Fibrotecoma	Jones ^{29a}	1989
	Le Bouedec ^{8a}	1992
	Rouzier ^{15a}	1998
	López-Olmos ³⁰	1999
	Santangelo ^{17a}	2000
	Massoni ^{31a}	2001
Tumor de células de la granulosa	Martin ^{32a}	1990
	Papathanasiou ³³	1998
Tumor de Brenner	Pratt-Thomas ³⁴	1976 (maligno)
	Aoshima ³⁵	1995
	Buttin ^{36a}	2001

^aElevación de CA 125.

que para el falso síndrome de Meigs o pseudo-Meigs³⁷⁻⁷⁷, que se ha descrito asociado a diversos tipos de tumores de ovario (tumor de células germinales, hemanjioma, linfoma, tumor mucinoso, carcinoma, metástasis), fibromas de paraovario, leiomiomas uterinos, miomas intraligamentarios o adenocarcinomas de trompa (tabla III).

Nosotros presentamos un síndrome de Meigs con fibroma celular de ovario, del cual se han encontrado 4 casos en la bibliografía^{7,12,16}, y un pseudosíndrome de Meigs en el que la paciente presentaba un carcinoma mucinoso sincrónico en ovarios y endometrio, aspecto que no ha sido relatado hasta la fecha.

A pesar de que el síndrome de Meigs se conoce desde hace más de 60 años, su fisiopatología no está del todo clara; se han propuesto diversas teorías para explicar el origen de la ascitis y el hidrotórax, aunque ninguna ha sido investigada en profundidad.

Meigs² sugirió que la causa de la ascitis podía ser la presión ejercida por el propio tumor sobre los linfáticos, que provocaría el escape de fluido a través de los mismos y que se acumularía en la cavidad peritoneal. Por otra parte, también podría suceder que debido al edema en el estroma tumoral se produjera trasudación del líquido al peritoneo. Meigs observó además que la cantidad de ascitis no dependía del tamaño tumoral. El hidrotórax, que puede ser uni o bilateral y con más frecuencia en el lado derecho (62% sólo derecho, 24% bilateral, 11% izquierdo), se formaría por difusión del líquido ascítico al espacio pleural por el diafragma a través de los linfáticos o de los intersticios entre las células². Esta teoría de la formación del hidrotórax a partir del líquido ascítico se basaba en el hecho de que los estudios de electroforesis habían mostrado que ambos fluidos eran similares y que, mediante la inyección

TABLA III. Falso síndrome de Meigs (después de 1954)

Tumor de células germinales	Kazanov ³⁷	1998
Teratoma maduro quístico	Hurlow ³⁸	1976
Estruma ovarii	Morell ³⁹	1980
	Devaney ⁴⁰	1993
	Amr ⁴¹	1994
	Szyfelbein ⁴²	1995 (2 casos)
	Bethune ^{43a}	1996
	Long ⁴⁴	2001
	Huh ^{45a}	2002
	Bokhari ^{46a}	2003
Tumor del seno endodérmico	Bridgewater ⁴⁷	1997 (maligno)
	Menzin ⁴⁸	1998
Hemangioma de ovario	Kanetta ^{49a}	2003
Linfoma de ovario	Yutani ⁵⁰	1982
Leiomioma de ovario	Reus ⁵¹	1995
Hiperplasia cortical estromal bilateral	Ramondetta ⁵²	1997
Edema masivo bilateral + hipertecosis estromal	Lacson ⁵³	1989
Cistoadenofibroma endometriode	Carson ⁵⁴	1982
Cistoadenoma mucinoso	Long ⁴⁴	2001
	Maiga ⁵⁵	2003
Tumor mucinoso <i>borderline</i>	Wiatrowska ⁵⁶	2000
Carcinoma de ovario	Hartstein ⁵⁷	1980 (adenocarcinoma papilar de ovario y trompa)
	Santopaolo ⁵⁸	1993
	Tarnowski ²⁵	1998
	López-Olmos ³⁰	1999 (carcinoma endometriode)
	Balbi ^{59a}	2001 (adenocarcinoma)
Leiomioma uterino	Terada ⁶⁰	1992
	Ollendorf ⁶¹	1997
	Domingo ^{62a}	1998
	Dunn ^{63a}	1998
	Migishima ^{64a}	2000
	Amant ^{65a}	2001
	Cuillier ⁶⁶	2002
	Kebapci ^{67a}	2002
	Sinawat ⁶⁸	2002
	Weise ^{69a}	2002
Leiomioma de ligamento ancho	Buckshee ⁷⁰	1990
	Brown ^{71a}	1998
Adenocarcinoma de trompa	Chen ⁷²	1995
	Shigenaga ^{73a}	1997
Fibroma de paraovario	Giannacopoulos ⁷⁴	1998
	Ceamanos ^{75a}	2002
Metástasis de carcinoma de colon	Nagakura ⁷⁶	2000
	Ohsawa ⁷⁷	2003

^aElevación de CA 125.

de un colorante (*India ink*), se observaba el paso del líquido ascítico desde el abdomen al tórax, y no al revés².

Posteriormente se han realizado estudios que sugieren la participación de diversas citocinas y factores de crecimiento en la patogenia del síndrome, los cuales, al aumentar la permeabilidad capilar, también contribuyen a la formación de la ascitis y al derrame pleural en otros procesos ginecológicos como son el síndrome de hiperestimulación ovárica y el cáncer de ovario^{18,78}. Abramov observó que los valores de inter-

leucina (IL) 1 β , IL 6, IL 8, el factor de crecimiento del endotelio vascular (VEGF) y de los fibroblastos (FGF), y el factor de necrosis tumoral α (TNF- α), estaban elevados en el plasma, en el líquido ascítico y en el pleural de una paciente de 62 años con fibroma ovárico y síndrome de Meigs antes de la cirugía, y que todos éstos, salvo el TNF- α , disminuían hasta valores normales en el plasma en el postoperatorio, coincidiendo con la desaparición de la ascitis y el hidrotórax^{18,78}. Las concentraciones de los citados factores, además de resultar indetectables en 3 pacientes

con fibromas benignos de ovario pero sin síndrome de Meigs, fueron más elevadas en el líquido ascítico que en el plasma, lo cual sugiere una secreción local, más que sistémica, por parte del tumor, mediando un aumento de la permeabilidad en la vascularización peritoneal y del tumor con la consecuente trasudación del fluido a la cavidad peritoneal y posteriormente, a través de los poros diafragmáticos, al espacio pleural; esto es apoyado por las menores concentraciones de esas sustancias vasoactivas en el líquido pleural en comparación con la ascitis^{18,78}. También se ha comunicado que los valores de leptina se encuentran inversamente relacionados con el tamaño tumoral, la acumulación de fluidos en el tercer espacio y la situación clínica, ya que éstos aumentan en el plasma tras la cirugía, a la vez que se resuelven el derrame pleural y la ascitis⁷⁹.

El síndrome de Meigs puede cursar con elevación del CA 125; en términos generales, un gran aumento en los valores de un marcador tumoral se corresponde con el diagnóstico de malignidad, aunque no debe olvidarse que determinadas patologías, no necesariamente malignas, que cursan con irritación mesotelial –endometriosis, cirrosis hepática, ascitis, derrame pleural o pericárdico, tumor de ovario benigno torsionado, enfermedad inflamatoria pélvica– también presentan marcadas elevaciones del CA 125⁸⁰. Buamah y Skillen⁸¹ encontraron que en una serie de 115 pacientes con tumores benignos de ovario el CA 125 estaba elevado en 14 de ellos (12,2%), con cifras que oscilaban entre 46 y 891 U/ml. Por tanto, sabemos que una elevación del CA 125 no tiene por qué indicar malignidad. En nuestro primer caso el CA 125 era de 175 U/ml (normal, < 35 U/ml) y finalmente se trataba de un tumor benigno (fibroma celular); en el caso del falso síndrome de Meigs (carcinoma mucinoso de ovario y endometrio), el CA 125 aumentó hasta 16.064 U/ml.

Se han publicado muchos casos de síndrome de Meigs y pseudo-Meigs que cursan con aumento del CA 125 (tablas II y III), con valores que varían entre 42,3¹³ y 7.000 U/ml⁹. El primer caso fue recogido por Jones en 1989 y se trataba de un fibrotecoma con CA 125 de 226 U/ml²⁹. Los 4 casos descritos de fibroma celular presentaban elevación de este marcador^{7,12,16}.

La etiología de la elevación del CA 125 no está clara. Se ha comprobado por estudios de inmunohistoquímica que la expresión del marcador se localiza en el omento y el peritoneo más que en el propio tumor, y que por tanto las células mesoteliales serían las responsables de la producción de antígeno debido a irritación mecánica por el tumor o la ascitis^{9,13,36}; tam-

bién se ha sugerido que la ascitis y el aumento del CA 125 podrían ser resultado de un proceso común con origen en el peritoneo⁹.

La resolución del derrame pleural y de la ascitis se produce por lo general varios días después de la cirugía. Meigs observó que el derrame pleural desaparecía entre 3 y 14 días tras la intervención², aunque puede tardar hasta 6 meses¹³; lo mismo sucede con el CA 125¹³, debido a la hiperplasia mesotelial producida.

En nuestro caso de síndrome de Meigs, el CA 125 se normalizó al mes de la cirugía y el derrame pleural se resolvió al tercer día. En el pseudo-Meigs el CA 125 descendió a los 14 días hasta 151 U/ml (previo, 16.064 U/ml) y el hidrotórax desapareció a los 12 días.

La evaluación preoperatoria con el CA 125, la ecografía y la TC raramente sugerirá que se trate de un síndrome de Meigs. Meigs comprobó que el diagnóstico preoperatorio se daba aproximadamente en el 37% de los casos². Hay que sospechar un síndrome de Meigs ante la presencia de un importante derrame pleural, elevación del CA 125, citología del líquido ascítico sin células malignas y ausencia de implantes peritoneales en la TC¹⁵.

Como conclusión, podemos decir que desde el punto de vista clínico y ante una paciente con ascitis, derrame pleural y masa pélvica, es importante tener en cuenta la posibilidad de que se trate de un síndrome de Meigs, puesto que, a pesar de la sospecha de una patología maligna, a veces incluso con elevación llamativa del CA 125, nos encontraremos ante un cuadro totalmente distinto que se resolverá simplemente con la extirpación del tumor.

RESUMEN

El síndrome de Meigs consiste en la asociación de tumor benigno de ovario «tipo fibroma» con ascitis e hidrotórax, que se resuelven tras la extirpación del tumor. A veces cursa con elevación del CA 125, que también se normaliza tras la intervención. Las mismas características, pero junto con otro tipo de tumores, benignos o malignos, constituyen el falso síndrome de Meigs. Este síndrome es conocido desde hace muchos años, pero su fisiopatología no parece estar del todo clara. En el presente artículo hemos tratado de realizar una amplia recopilación de lo publicado con respecto al tema, aprovechando la comunicación de 2 casos clínicos, un verdadero y un falso síndrome de Meigs asociados respectivamente a fibroma celular de ovario y carcinoma mucinoso de ovario y endometrio.

BIBLIOGRAFÍA

- Meigs JV. Fibroma of the ovary with ascites and hydrothorax. *Am J Obstet Gynecol.* 1937;33:249-67.
- Meigs JV. Fibroma of the ovary with ascites and hydrothorax. Meigs' syndrome. *Am J Obstet Gynecol.* 1954;67:962-87.
- Lurie S. Meigs' syndrome: the history of the eponym. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2000;92:199-204.
- Latta RJ, Lee PD. Meigs' syndrome in a young woman. *J Adolesc Health Care.* 1981;1:313-5.
- Liu TH, Yan SS, Lee YN. Meigs' syndrome: a case report. *Zhonghua Yi Xue Za Zhi.* 1989;44:322-4.
- Bierman SM, Reuter KL, Hunter RE. Meigs' syndrome and ovarian fibroma: CT findings. *J Comput Assist Tomogr.* 1990;14:833-4.
- Walker JL, Manetta A, Mannel RS, Liao SY. Cellular fibroma masquerading as ovarian carcinoma. *Obstet Gynecol.* 1990;76:530-1.
- Le Bouedec G, Glowaczower E, De Latour M, Fondrinier E, Dauplat J. Demons-Meigs' syndrome. A case of thecoma and ovarian fibroma. *J Gynecol Obstet Biol Reprod.* 1992;21:651-4.
- Lin JY, Angel C, Sickel J. Meigs' syndrome with elevated serum CA 125. *Obstet Gynecol.* 1992;80:563-6.
- Stratan D, Socolov R. Meigs' syndrome. A case report and review of literature. *Rev Med Chir Soc Med Nat Iasi.* 1992;96:30-2.
- Novoa-Vargas A, Tenorio González F, Gómez Pedrosó J, Torres A. Meigs' syndrome. A clinical case and review of the literature. *Ginecol Obstet Mex.* 1994;62:217-21.
- Siddiqui M, Toub DB. Cellular fibroma of the ovary with Meigs' syndrome and elevated CA 125. *J Reprod Med.* 1995;40:817-9.
- Timmerman D, Moerman P, Vergote I. Meigs' syndrome with elevated serum CA 125 levels: two case reports and review of the literature. *Gynecol Oncol.* 1995;59:405-8.
- Calleja MA, Roldán A, Martínez A, Álvarez de los Heros JL. Síndrome de Meigs. *Clin Invest Ginecol Obstet.* 1996;23:283-5.
- Rouzier R, Berger A, Cugnenc PH. Meigs' syndrome: is it possible to make a preoperative diagnosis? *J Gynecol Obstet Biol Reprod.* 1998;27:517-22.
- Abad A, Cazorla E, Ruiz F, Aznar I, Asins E, Llixiona J. Meigs' syndrome with elevated CA 125: case report and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 1999;82:97-9.
- Santangelo M, Battaglia M, Vescio G, Sammarco G, Gallelli G, Sommella L, et al. Meigs' syndrome: its clinical picture and treatment. *Ann Ital Chir.* 2000;71:115-9.
- Abramov Y, Anteby SO, Fasouliotis SJ, Barak V. Markedly elevated levels of vascular endothelial growth factor, fibroblast growth factor, and interleukin 6 in Meigs' syndrome. *Am J Obstet Gynecol.* 2001;184:354-5.
- Kamiyama K, Moromizato H, Toma T, Kinjo T, Iwamasa T. Two cases of supernumerary ovary: one with large fibroma with Meigs' syndrome and the other with endometriosis and cystic change. *Pathol Res Pract.* 2001;197:847-51.
- López-Sánchez P, Laforga J, Torregrosa P, García JL, Rius J. Síndrome de Meigs: presentación de dos casos. *Prog Obstet Ginecol.* 2002;45:403-7.
- Morillo M, González-Sicilia E, Martín F, Muñoz V, Calero M, Córdón J. Síndrome de Meigs con valores elevados de CA 125. Aportación de un caso y revisión de la bibliografía. *Clin Invest Ginecol Obstet.* 2003;30:355-8.
- Nemeth AJ, Patel SK. Meigs' syndrome revisited. *J Thorac Imaging.* 2003;18:100-3.
- Hopkins M, Malviya VK, Nunez C. Meigs' syndrome and ovarian thecoma in pregnancy. A case report. *J Reprod Med.* 1986;31:198-202.
- Turan YH. Elevated CA 125 in Meigs' syndrome. *Int J Gynecol Obstet.* 1993;43:64-5.
- Tarnowski B, Krolewski P. True and pseudo-Meigs' syndrome. *Ginekol Pol.* 1998;69:813-6.
- Bognoni V, Quartuccio A Jr, Quartuccio A. Meigs' syndrome with high blood levels of CA 125. Clinical case and review of the literature. *Minerva Ginecol.* 1999;21:509-12.
- Renaud MC, Plante M, Roy M. Ovarian thecoma associated with a large quantity of ascites and elevated serum CA 125 and CA 15.3. *J Obstet Gynaecol Can.* 2002;24:963-5.
- Vieira SC, Pimentel LH, Ribeiro JC, De Andrade Neto AF, de Santana JO. Meigs' syndrome with elevated CA 125: case report. *Sao Paulo Med J.* 2003;121:210-2.
- Jones OW III, Surwit EA. Meigs' syndrome and elevated CA 125. *Obstet Gynecol.* 1989;73:520-1.
- López-Olmos J, Navarro P, Terrádez JJ. Síndrome de Meigs y falso síndrome de Meigs: sendos casos. *Clin Invest Ginecol Obstet.* 2000;27:140-6.
- Massoni F, Carbillon L, Azria E, Uzan M. Demons-Meigs syndrome: a propos of 1 case. *Gynecol Obstet Fertil.* 2001;29:905-7.
- Martin F, Brouche S, Haidar A. Demons-Meigs' syndrome. Report of a case with ovarian tumour of the granulosa. *Rev Pneumol Clin.* 1990;46:123-4.
- Papathanasiou K, Papagiorgiu C, Tsonoglou D. A case of Meigs' syndrome with a gigantic granulosa ovarian tumor. *Clin Exp Obst Gyn.* 1998;25:61-3.
- Pratt-Thomas HR, Kreutner A Jr, Underwood PB, Dowdeswell RH. Proliferative and malignant Brenner tumors of ovary. Report of two cases, one with Meigs' syndrome, review of literature, and ultrastructural comparisons. *Gynecol Oncol.* 1976;4:176-93.
- Aoshima M, Tanaka H, Takahashi M, Nakamura K, Makino I. Meigs' syndrome due to Brenner tumor mimicking lupus peritonitis in a patient with systemic lupus erythematosus. *Am J Gastroenterol.* 1995;90:657-8.
- Buttin BM, Cohn DE, Herzog TJ. Meigs' syndrome with an elevated CA 125 from benign Brenner tumors. *Obstet Gynecol.* 2001;98:980-2.
- Kazanov L, Ander DS, Enriquez E, Jaggi FM. Pseudo-Meigs' syndrome. *Am J Emerg Med.* 1998;16:404-5.
- Hurlow RA, Greening WP, Krantz E. Ascites and hydrothorax in association with struma ovarii. *Br J Surg.* 1976;63:110-2.
- Morell ND, Frost D, Ziel HK. Pseudo Meigs' syndrome. A case report. *J Reprod Med.* 1980;25:88-90.
- Devaney K, Snyder R, Norris HJ, Tavassoli FA. Proliferative and histologically malignant struma ovarii: a clinicopathologic study of 54 cases. *Int J Gynecol Pathol.* 1993;12:333-43.
- Amr SS, Hassan AA. Struma ovarii with pseudo-Meigs' syndrome: report of a case and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 1994;55:205-8.
- Szyfelbein WM, Young RH, Scully RE. Struma ovarii simulating ovarian tumors of other types. A report of 30 cases. *Am J Surg Pathol.* 1995;19:21-9.
- Bethune M, Quinn M, Rome R. Struma ovarii presenting as acute pseudo-Meigs syndrome with an elevated CA 125 level. *Aust N Z J Obstet Gynaecol.* 1996;36:372-3.
- Long CY, Chen YH, Chen SC, Lee JN, Su JH, Hsu SC. Pseudo-Meigs syndrome and elevated levels of tumors markers. *Kaohsiung J Med Sci.* 2001;17:582-5.

45. Huh JJ, Montz FJ, Bristow RE. Struma ovarii associated with pseudo-Meigs' syndrome and elevated serum CA 125. *Gynecol Oncol.* 2002;86:231-4.
46. Bokhari A, Rosenfeld GS, Cracchiolo B, Heller DS. Cystic struma ovarii presenting with ascites and an elevated CA 125 level. A case report. *J Reprod Med.* 2003;48:52-6.
47. Bridgewater JA, Rustin GJS. Pseudo-Meigs' syndrome secondary to an ovarian germ cell tumor. *Gynecol Oncol.* 1997;66:539-41.
48. Menzin AW. A case of pseudo-Meigs' syndrome secondary to an ovarian germ cell tumor. *Gynecol Oncol.* 1998;70:441.
49. Kanetta Y, Nishino R, Asaoka K, Toyoshima K, Ito K, Kitai H. Ovarian hemangioma presenting as pseudo-Meigs' syndrome with elevated CA 125. *J Obstet Gynaecol Res.* 2003;29:132-5.
50. Yutani C, Maeda H, Nakajima, Takeuchi N, Kimura M, Kitamura H. Primary ovarian lymphoma associated with Meigs' syndrome. A case report. *Acta Cytol.* 1982;26:44-8.
51. Reus E, Callejo J, Alsina M, Cusi V, Lailla JM. Síndrome de Meigs y elevación del CA 125. Comentario a propósito de un caso. *Prog Obstet Ginecol.* 1995;38:265-6.
52. Ramondetta LM, Carlson JA Jr, Schwarting R. Atypical Meigs' syndrome and bilateral ovarian stromal hyperplasia. A case report. *J Reprod Med.* 1997;42:603-5.
53. Lacson AG, Alrabeeh A, Gillis DA, Salisbury S, Grantmyre EB. Secondary massive ovarian edema with Meigs' syndrome. *Am J Clin Pathol.* 1989;91:597-603.
54. Carson SA, Mazur MT. Atypical endometrioid cystadenofibroma with Meigs' syndrome: ultrastructure and S-phase fraction. *Cancer.* 1982;49:472-9.
55. Maiga B, Dolo A, Dembele M, Traore HA, Leroy P, Pichard E. Meigs' syndrome. One case. *Gynecol Obstet Fertil.* 2003;31:240-2.
56. Wiatrowska B, Krajci P, Berner A. Pseudo-Meigs' syndrome. *Tidsskr Nor Laegeforen.* 2000;120:364-6.
57. Hartstein JA, Jacobs AJ, Deppe G, Moshirip J, Cohen CJ. Pseudo-Meigs syndrome with resulting papillary adenocarcinomas of the ovary and fallopian tube. *Int J Gynaecol Obstet.* 1980;18:170-1.
58. Santopaolo O, Rotondo A, Alfe M, Canciello P, Rito Marccone G. Meigs syndrome with bilateral hydrothorax. *Minerva Ginecol.* 1993;45:263-6.
59. Balbi GC, Musone R, Compagna R, Cirelli G, Cassese E, Delli Ponti E, et al. Meigs' syndrome and «Meigs' pseudo-syndrome». Report of two cases. *Minerva Ginecol.* 2001;53 Suppl 1:110-3.
60. Terada S, Suzuki N, Uchide K, Akasofu K. Uterine leiomyoma associated with ascites and hydrothorax. *Gynecol Obstet Invest.* 1992;33:54-8.
61. Ollendorf AT, Keh P, Hoff F, Lurain JR, Fishman DA. Leiomyoma causing massive ascites, right pleural effusion and respiratory distress. A case report. *J Reprod Med.* 1997;42:609-12.
62. Domingo P, Montiel JA, Monill JM, Prat J. Pseudo-Meigs' syndrome with elevated CA 125 levels. *Arch Intern Med.* 1998;158:1378-9.
63. Dunn JS, Anderson CD, Metted MW, Brost BC. Hydropic degenerating leiomyoma presenting as pseudo-Meigs' syndrome with elevated CA 125. *Obstet Gynecol.* 1998;92:648-9.
64. Migishima F, Jobo T, Hata H, Sato R, Ikeda Y, Arai M, et al. Uterine leiomyoma causing massive ascites and left pleural effusion with elevated CA 125: a case report. *J Obstet Gynaecol Res.* 2000;26:283-7.
65. Amant F, Gabriel C, Timmerman D, Vergote I. Pseudo-Meigs' syndrome caused by hydropic degenerating uterine leiomyoma with elevated CA 125. *Gynecol Oncol.* 2001;83:153-7.
66. Cuillier F, David K, Tanguy M. An atypical Demons-Meigs syndrome. *Gynecol Obstet Fertil.* 2002;30:390-3.
67. Kebapci M, Aslan O, Kaya T, Yalcin OT, Ozalp S. Pedunculated uterine leiomyoma associated with pseudo-Meigs' syndrome and elevated CA 125 level: CT features. *Eur Radiol.* 2002;12:127-9.
68. Sinawat S, Seejorn K. Pseudo-Meigs' syndrome secondary to subserous myoma uterine: case report. *J Med Assoc Thai.* 2002;85:1240-3.
69. Weise M, Westphalen S, Fayyazi A, Emons G, Krauss T. Pseudo-Meigs syndrome: uterine leiomyoma with bladder attachment associated with ascites and hydrothorax – a rare case of a rare syndrome. *Onkologie.* 2002;25:443-6.
70. Buckshee K, Dhond AJ, Mittal S, Bose S. Pseudo-Meigs' syndrome secondary to broad ligament leiomyoma: a case report. *Asia Oceania J Obstet Gynaecol.* 1990;16:201-5.
71. Brown RS, Marley JL, Cassoni AM. Pseudo-Meigs' syndrome due to broad ligament leiomyoma: mimic of metastatic ovarian carcinoma. *Clin Oncol.* 1998;10:198-201.
72. Chen FC, Fink RL, Jolly H. Meigs' syndrome in association with a locally invasive adenocarcinoma of the fallopian tube. *Aust N Z J Surg.* 1995;65:761-2.
73. Shigenaga T, Sugama Y, Kitamura S, Kuriki K, Saito K. Meigs' syndrome associated with adenocarcinoma of the left fallopian tube. *Nihon Kyobu Shikkan Gakkai Zasshi.* 1997;35:1132-5.
74. Giannacopoulos K, Giannacopoulos Ch, Matalliotakis I, Neonaki M, Papanicolaou N, Koumantakis E. Pseudo-Meigs' syndrome caused by paraovarian fibroma. *Eur J Gynaecol Oncol.* 1998;19:389-90.
75. Ceamanos C, García-Manero M, Idoate MA, Alcázar JL, Mínguez JA, Galán MJ, et al. Síndrome de Meigs asociado a tumor paraovárico. *Prog Obstet Ginecol.* 2002;45:300-4.
76. Nagakura S, Shirai Y, Hatakeyama K. Pseudo-Meigs' syndrome caused by secondary ovarian tumor from gastrointestinal cancer. A case report and review of the literature. *Dig Surg.* 2000;17:418-9.
77. Ohsawa T, Ishida H, Nakada H, Inokuma S, Hashimoto D, Kuroda E, et al. Pseudo-Meigs' syndrome caused by ovarian metastasis from a cancer: report of a case. *Surg Today.* 2003;33:387-91.
78. Abramov Y, Anteby SO, Fasouliotis SJ, Barak V. The role of inflammatory cytokines in Meigs' syndrome. *Obstet Gynecol.* 2002;99:917-9.
79. Abramov Y, Anteby SO, Fasouliotis SJ, Barak V. The kinetics of leptina in Meigs' syndrome. *Gynecol Oncol.* 2001;83:316-8.
80. Ponce J, Martí MD, Balagueró L. Marcadores tumorales en cáncer ginecológico. En: Cabero L, editor. *Tratado de ginecología, obstetricia y medicina de la reproducción.* Madrid: Editorial Médica Panamericana, 2003. p. 1653-61.
81. Buamah PK, Skillen AW. Serum CA 125 concentrations in patients with benign ovarian tumours. *J Surg Oncol.* 1994;56:71-4.