

Adenocarcinoma papilar seroso en colon sigmoide originado sobre endosalpingiosis quística. A propósito de un caso y revisión de la literatura

Serous papillary adenocarcinoma of the sigmoid colon arising in cystic endosalpingiosis. Report of a case and review of the literature

Juan Segura Sánchez, Eduardo Solís García, Teresa González Serrano

RESUMEN

Resumen: La endosalpingiosis es definida histológicamente por la presencia de glándulas lineadas por epitelio de tipo tubárico y es frecuentemente observada en vísceras pélvicas y peritoneo abdominal. Aunque raramente adenocarcinomas serosos, similares a los que ocurren en ovario, se originan en retroperitoneo, éste es el segundo caso que ocurre en asociación con una endosalpingiosis. **Método:** Hemos revisado las características histológicas, clínicas y la literatura médica. Secciones representativas se tiñeron con hematoxilina-eosina y se realizaron tinciones inmunohistoquímicas usando el método de estreptavidina-biotina-peroxidasa para citoqueratina 20, citoqueratina 7, calretinina, CA125, CA19.9 y receptores de estrógenos. **Resultados:** histológicamente las áreas de adenocarcinoma papilar seroso estaban compuestas por células con atipia nuclear moderada organizadas en estructuras glandulares y papilas complejas. Se observaron áreas de transición entre el epitelio ciliado benigno y el adenocarcinoma seroso bien diferenciado. Inmunohistoquímicamente, las células tumorales fueron positivas para citoqueratina 7, CA125 y receptores de estrógenos, pero negativas para citoqueratina 20, calretinina y CA19.9. **Conclusión:** Presentamos un nuevo caso de adenocarcinoma papilar seroso en colon sigmoideo originado en el seno de una endosalpingiosis quística.

Palabras clave: Endosalpingiosis, adenocarcinoma papilar seroso, colon.

SUMMARY

Background: Endosalpingiosis is defined as the presence of histologically benign glands lined by tubal-type epithelium and is commonly encountered in the visceral pelvic and abdominal peritoneum. Although rarely serous adenocarcinomas, similar to those occurring within the ovary, arise in the retroperitoneum, this is the second reported occurrence in association with a endosalpingiosis. **Methods:** We have reviewed the histological features, clinical features and the medical literature. Representative sections were stained with hematoxylin-eosin and immunohistochemical stains were performed by using the streptavidin-biotin peroxidase method for cytokeratin 20, cytokeratin 7, calretinin, CA125, CA19.9 and estrogen receptor. **Results:** histologically serous papillary adenocarcinoma areas was composed of a complex papillary and glandular arrangement of cuboidal cells with moderate nuclear atypia. Areas of transition could be seen between the benign ciliated lining and the well differentiated serous adenocarcinoma. Immunohistochemically, the tumour cells were positive for cytokeratin 7, CA125 and estrogen receptor, but were negative for cytokeratin 20, calretinin and CA19.9. **Conclusions:** we report a new case of a serous papillary adenocarcinoma arising in the sigmoid colon within cystic endosalpingiosis.

Keywords: Endosalpingiosis, serous papillary adenocarcinomas, colon.

Rev Esp Patol 2008; 41 (2): 146-149

INTRODUCCIÓN

La endosalpingiosis, que junto a la endometriosis y la endocervicosis forman la triada de lesiones no neoplásicas mullerianas secundarias, es definida por la presencia de inclusiones glandulares de tipo tubárico en localización ectópica.

Mientras que la transformación maligna de la endometriosis ocurre en el 0,7-1% de los pacientes (1), sólo dos casos de transformación neoplásica maligna de endosalpingiosis han sido previamente descritos (2-3).

Presentamos un nuevo caso de esta infrecuente neoplasia, la primera con origen intestinal, haciendo hincapié en su histogénesis, diagnóstico diferencial y medidas terapéuticas.

Recibido el 2/12/06. Aceptado el 29/03/07.

Servicio de Anatomía Patológica. Hospital Infanta Margarita. Cabra (Cordoba).
jsegurasanchez@yahoo.es

PRESENTACIÓN DEL CASO

Mujer de 44 años que consulta por dolor en hipogastrio izquierdo, pérdida de peso y rectorragia. Como antecedentes personales destaca una histerectomía con doble anexectomía ocho años antes por leiomiomas uterinos y endometriosis quística ovárica bilateral. Ante este cuadro clínico se practica colonoscopia con toma de biopsia que es informada como «infiltración parcial de mucosa colónica por un adenocarcinoma con patrón de crecimiento papilar». La paciente es sometida a cirugía programada, mostrando en este momento un nivel de CA125 de 1.121 U/ml (niveles normales: 0-35 U/ml), contrastando con lo obtenido ocho años antes cuando la paciente fue sometida a histerectomía con doble anexectomía donde sólo fue de 6,7 U/ml. Por su parte el CA 19,9 se muestra en todo momento en un rango dentro de la normalidad (21,02 U/ml).

Se recibe un segmento de intestino grueso (sigma) de 14 cm de longitud que a su apertura muestra abundante material mucoso intraluminal de coloración verdosa en el seno del cual se observa una tumoración fungosa y de apariencia multiquística que mide 3 cm de diámetro máximo y que ocupa la totalidad de la pared intestinal, ocluyendo solo parcialmente la luz colónica. Histológicamente se identifica a nivel de pared colónica una neoformación constituida por abundantes quistes de diferentes tamaños revestidos en parte por una monocapa de células epiteliales variablemente ciliadas de apariencia benigna y sin estroma acompañante (endosalpingiosis) y en parte por un epitelio con crecimiento papilar complejo recubierto por células estratificadas atípicas con numerosas figuras de mitosis, cuerpos de psamoma y extensas áreas de necrosis (áreas de adenocarcinoma papilar seroso) (figs. 1, 2 y 3). Dicha proliferación neoplásica aunque muestra preferentemente un crecimiento intraquístico también invade el

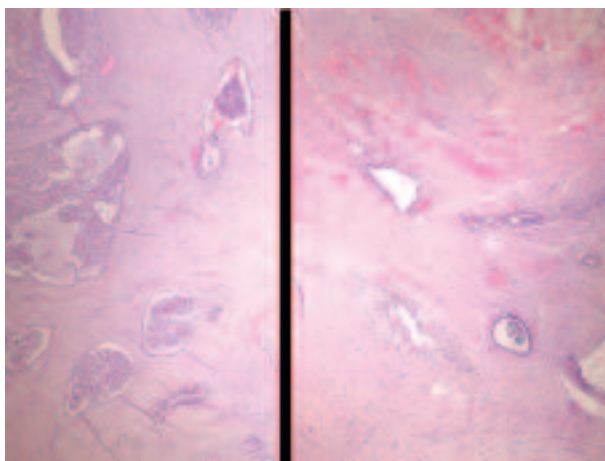


Fig. 1: Focos de endosalpingiosis en serosa y muscular propia intestinal (figura de la derecha); adenocarcinoma papilar seroso intraquístico (figura de la izquierda). HE 5x.

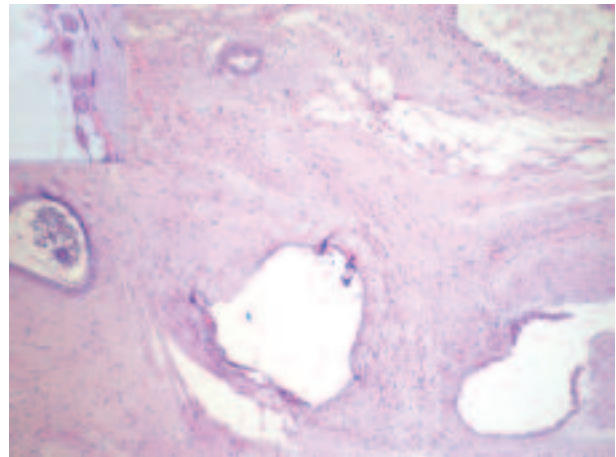


Fig. 2: Focos de endosalpingiosis en serosa y muscular propia intestinal con mayor detalle. Observe el epitelio parcialmente ciliado en el recuadro superior de la izquierda. HE 20x.

tejido adiposo pericólico, muscular propia y mucosa intestinal brotando en la luz colónica (fig. 4). La mucosa intestinal adyacente al crecimiento tumoral no muestra displasia y del tejido adiposo se aíslan catorce ganglios linfáticos de los que nueve son metastásicos. El estudio inmunohistoquímico muestra inmunotinción para receptores de estrógenos (fig. 5), citoqueratina 7 y Ca125 (fig. 6) en áreas de endosalpingiosis y en áreas de adenocarcinoma papilar seroso, siendo negativo para citoqueratina 20, calretinina y CA19.9. Por otro lado, antes de emitir el presente diagnóstico, hemos revisado la histerectomía con doble anexectomía remitida ocho años antes confirmando el diagnóstico histológico de entonces.

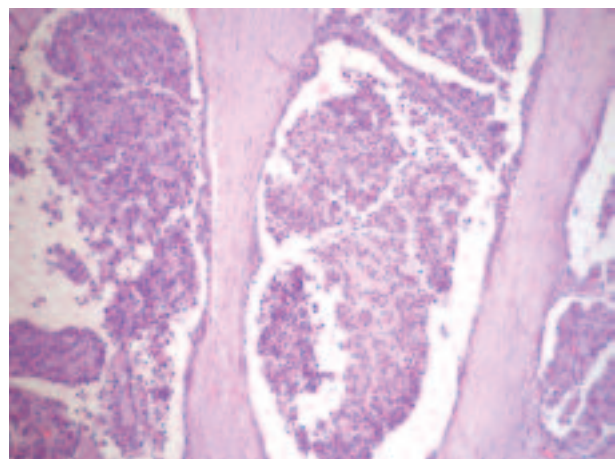


Fig. 3: Áreas de adenocarcinoma papilar seroso intraquístico con mayor detalle. He 20x.

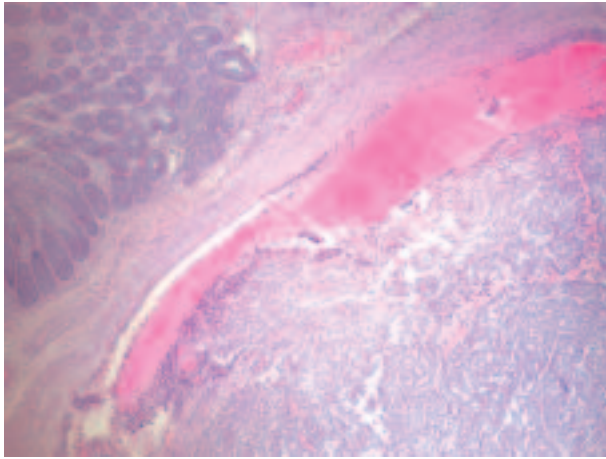


Fig. 4: Infiltración de la submucosa colónica por el adenocarcinoma papilar seroso. HE 20x.

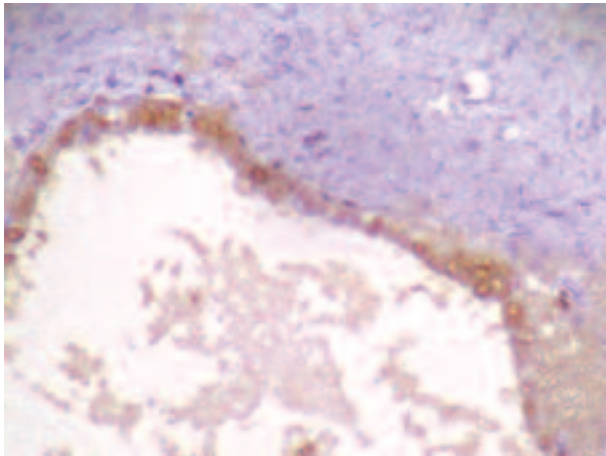


Fig. 5: Positividad nuclear para receptores estrogénicos en foco de endosalpingiosis. HE 40X.

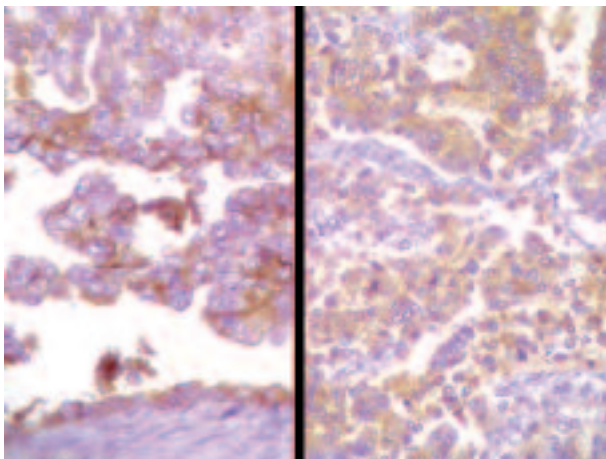


Fig. 6: Positividad para citoqueratina 7 (figura de la izquierda) y para CA125 (figura de la derecha). HE 40X.

DISCUSIÓN

El término endosalpingiosis fue acuñado por Sampson (4) en 1930 para definir un inusual crecimiento e invasión del epitelio tubárico en pacientes con salpinguectomía previa. El diagnóstico de endosalpingiosis es histológico y se realiza en base a la presencia de estructuras glandulares revestidas por una o más capas de células columnares bajas o cuboidales frecuentemente ciliadas y sin estroma acompañante en la superficie de órganos pélvicos y peritoneo. Esta ausencia de estroma es la que permite diferenciar la endosalpingiosis de la endometriosis, ya que esta última puede presentar metaplasia ciliada. Los focos de endosalpingiosis se observan preferentemente a nivel peritoneal, superficie ovárica, uterina o tubárica; sin embargo, otras muchas localizaciones han sido descritas, como endosalpingiosis de ganglios linfáticos, vejiga urinaria, colon, apéndice cecal, piel, bazo o de forma florida en útero (5-9).

La endosalpingiosis afecta a mujeres de un amplio rango de edad (12-66 años), presentando un pico de incidencia en la tercera y cuarta década; desde el punto de vista clínico raramente provoca sintomatología, no obstante existen casos descritos de endosalpingiosis sintomática; así, Clement y Young (10) describieron cuatro casos, uno de ellos afectando al recto-sigma, de endosalpingiosis florida que se presentaba como una masa tumoral clínicamente evidente.

La histogénesis de la endosalpingiosis es discutida; así mientras algunos autores consideran que se origina a partir de una diferenciación mülleriana o metaplásica de células mesoteliales del sistema mülleriano secundario como consecuencia de estímulos hormonales, procesos inflamatorios o cirugía previa (5,6), otros abogan por la denominada teoría «metastásica» es decir implantación de epitelio tubárico a nivel peritoneal o seroso (5). Aunque la transformación papilar benigna de endosalpingiosis es observada con relativa frecuencia, y casos de adenocarcinoma papilar seroso en peritoneo han sido previamente descritos (11-14), la progresión maligna de focos de endosalpingiosis sólo ha sido descrita en dos ocasiones; un adenocarcinoma papilar seroso del mesocolon sigmoideo originado sobre una endosalpingiosis quística (2) y un tumor seroso de bajo potencial maligno (borderline) originado a partir de un foco de endosalpingiosis inguinal (3). Nosotros presentamos el tercer caso, el primero en serosa intestinal, de endosalpingiosis con transformación maligna.

El diagnóstico diferencial debe establecerse principalmente con el adenocarcinoma papilar primario de colon y con la metástasis o infiltración intestinal de un adenocarcinoma papilar seroso de origen ovárico. El primero puede ser descartado no sólo por la apariencia histológica tumoral sino también por la ausencia de displasia en la mucosa intestinal adyacente y la positividad

inmunohistoquímica para citoqueratina 7, CA125 y receptores estrogénicos y negatividad para citoqueratina 20. Por otra parte, un origen ovárico de la tumoración intestinal en nuestra paciente parece igualmente descartado por su propia historia clínica, ya que fue sometida ocho años antes a una histerectomía con doble anexectomía por endometriosis ovárica bilateral y leiomiomas múltiples uterinos.

Respecto al tratamiento de un adenocarcinoma papilar seroso originado a partir de una endosalpingiosis no ha sido establecido debido a la rareza de estas neoplasias. La resección tumoral completa con o sin quimioterapia adyuvante en función de la extensión tumoral y la existencia de metástasis ganglionares parece el tratamiento de elección (14).

En conclusión presentamos un nuevo caso de transformación maligna de una endosalpingiosis, el primero en localización intestinal. Además, pretendemos llamar la atención que la presencia de un adenocarcinoma papilar seroso extraovárico no siempre es de origen metastásico si no que éste puede ser primario a expensas de nidos de endosalpingiosis.

BIBLIOGRAFÍA

1. Heaps JM, Nieberg RK, Berek JS. Malignant neoplasms arising in endometriosis. *Obstet Gynecol* 1990; 75: 1023-8.
2. McCoubrey A, Houghton O, McCallion K, McCluggage WG. Serous adenocarcinoma of the sigmoid mesentery arising in cystic endosalpingiosis. *J Clin Pathol* 2005; 58: 1221-3.
3. Carrick KS, Milvenan JS, Albores-Saavedra J. Serous tumor of low malignant potential arising in inguinal endosalpingiosis: report of a case. *Int J Gynecol Pathol* 2003; 22: 412-5.
4. Sampson JA. Postsalpingectomy endometriosis (endosalpingiosis). *Am J Obstet Gynecol* 1930; 20: 443-80.
5. Edmondson JD, Voageley KJ, Howell JD, Koontz WW, Koo HP, Amaker B. Endosalpingiosis of bladder. *J Urol* 2002; 167: 1401-2.
6. McCluggage WG, Clements WD. Endosalpingiosis of the colon and appendix. *Histopathology* 2001; 39: 645-6.
7. Perera GK, Watson KM, Salisbury J, Du Vivier AW. Two cases of cutaneous umbilical endosalpingiosis. *Br J Dermatol* 2004; 151: 924-5.
8. Tanahashi J, Kashima K, Daa T, Kondo Y, Kitano S, Yokoyama S. Florid cystic endosalpingiosis of the spleen. *APMIS* 2006; 114: 393-8.
9. Youssef AH, Ganesan R, Rollason TP. Florid cystic endosalpingiosis of the uterus. *Histopathology* 2006; 49: 546-8.
10. Clement PB, Young RH. Florid cystic endosalpingiosis with tumor-like manifestations: a report of four cases including the first reported cases of transmural endosalpingiosis of the uterus. *Am J Surg Pathol* 1999; 23: 166-75.
11. Caruncho M, Pombo F, Arnal-Monreal F. Primary retroperitoneal serous cystadenocarcinoma of 'ovarian-type': US and CT findings. *Eur J Radiol* 1993; 17: 115-6.
12. Kaku M, Ohara N, Seima Y, Imanishi K, Tomura N, Kobayashi A et al. A primary retroperitoneal serous cystadenocarcinoma with clinically aggressive behavior. *Arch Gynecol Obstet* 2004; 270: 302-6.
13. Kurosaki Y, Kuramoto K. Case report: Serous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum: CT and sonographic appearance. *Clin Radiol* 1998; 53: 916-8.
14. Ulbright TM, Morley DJ, Roth LM, Berkow RL. Papillary serous carcinoma of the retroperitoneum. *Am J Clin Pathol* 1983; 79: 633-7.