



PROGRESOS de OBSTETRICIA Y GINECOLOGÍA

www.elsevier.es/pog



CASO CLÍNICO

Tumor de Sertoli-Leydig como hallazgo casual en quistectomía por endometriosis

Helena Millán Cantero^{a,*}, Carlos Escudero Severín^b, Ana M. Ferrari Bellver^a,
Carmen Eloy-García Carrasco^b y Antonio De Toro Salas^a

^a Servicio de Ginecología, Hospital San Juan de Dios del Aljarafe, Bormujos, Sevilla, España

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital San Juan de Dios del Aljarafe, Bormujos, Sevilla, España

Recibido el 8 de julio de 2008; aceptado el 25 de septiembre de 2008

Accesible en línea el 7 de enero de 2010

PALABRAS CLAVE

Sertoli-Leydig;
Endometriosis;
Quiste ovárico

KEYWORDS

Sertoli-Leydig;
Endometriosis;
Ovarian cyst

Resumen Los tumores de ovario se diagnostican en su mayoría mediante hallazgos casuales en pruebas diagnósticas realizadas por otro motivo. La endometriosis sintomática es un motivo de consulta frecuente en mujeres jóvenes. Los tumores de Sertoli-Leydig son tumores de origen embrionario muy poco habituales. En este caso, el diagnóstico del tumor embrionario se produce en una intervención quirúrgica por endometriosis y como hallazgo de una biopsia del ovario contralateral en una mujer con deseo reproductivo y sin sospecha previa.

© 2009 SEGO. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Sertoli-Leydig tumour as a casual finding during laparoscopy for endometriosis

Abstract Ovarian tumours are mostly casual findings in imaging tests performed for another reason. Symptomatic endometriosis is a common reason in young women attending clinics. Sertoli-Leydig tumours have an embryological origin and are very rare. In this case the diagnosis was made during surgery for an endometriosis and as a finding in the contralateral ovarian biopsy.

© 2009 SEGO. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

Los tumores de células de Sertoli-Leydig representan menos del 0,5% de todas las neoplasias ováricas¹.

La mayoría aparece en mujeres jóvenes, alrededor de los 25 años, y casi la mitad se acompaña de síntomas de hiperandrogenismo. En ocasiones no presentan síntomas

endocrinos y debutan con aumento del perímetro abdominal, dolor o son simplemente un hallazgo casual².

Pueden asociarse al síndrome de Peutz-Jeghers, aunque la neoplasia ovárica que más frecuentemente presentan estas pacientes es el tumor de los cordones sexuales con diferenciación anular (SCTAT)³.

Generalmente son sólidos, pero pueden presentar áreas quísticas. Microscópicamente, la variante más común presenta túbulos alineados con células de Sertoli libres, separadas por células de Leydig, y suelen ser bien diferenciados⁴.

La mayoría son benignos y unilaterales (son bilaterales en menos del 2% de los casos) y se presentan en estadio IA de la

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: hemillan@hotmail.com,
hemillan@aljarafe.sjd.es (H. Millán Cantero).

FIGO. Por esto, y porque suelen presentarse a edades tempranas, el tratamiento conservador suele ser de elección en las pacientes jóvenes⁵.

El pronóstico es, en general, bueno y se correlaciona con el estadio y el grado de diferenciación. Aquellos con un mal pronóstico pueden necesitar quimioterapia coadyuvante⁶.

Caso clínico

Paciente de 26 años, con un parto eutócico y sin antecedentes médico-quirúrgicos de interés, que acudió a consulta por dismenorrea.

La exploración era compatible con la normalidad y en la ecografía transvaginal se visualizó una imagen quística en el anejo derecho, compatible con endometrioma ovárico, de 40 mm. En el anejo contralateral se evidenció una zona hiperecogénica intraovárica de 23 mm.

Se pautaron anticonceptivos orales a dosis bajas y se citó a consulta para control ecográfico en 4 meses.

La paciente refirió persistencia de la dismenorrea y deseo de gestación en la consulta posterior. En la ecografía transvaginal se evidenció un incremento del tamaño del quiste, que medía 50 mm, por lo que se propuso una quistectomía laparoscópica.

La laparoscopia se realizó bajo anestesia general. Durante la intervención se evidenciaron líquido libre intraperitoneal en cantidad moderada, quiste endometriósico de unos 50 mm en ovario derecho, y ovario izquierdo con polo sólido en zona superior y foco endometriósico inferior. Se realizaron la aspiración del líquido libre, la quistectomía del endometrioma derecho y la extirpación del foco endometriósico izquierdo. Por último, se efectuó una biopsia en cuña del polo sólido del ovario izquierdo.

La evolución posquirúrgica fue favorable.

El informe anatomopatológico describió:

- Dos endometriomas ováricos, izquierdo y derecho.
- Citología negativa para células neoplásicas, con presencia de células mesoteliales reactivas en líquido libre.
- Fragmento laminar pardusco de 1,5 × 1 × 1 cm del ovario izquierdo, de coloración blanquecina y consistencia firme-elástica, que correspondió en el estudio histopatológico a una neoplasia derivada de los cordones sexuales y, concretamente, de los dos tipos celulares Sertoli y Leydig; este caso correspondió a tumor de células de Sertoli-Leydig con áreas intratubulares (túbulos anulares-like). A microscopía de bajo aumento, la neoplasia se caracterizó por una arquitectura nodular con bandas fibrosas separadas por lóbulos constituidos por túbulos sólidos mostrando en la luz una secreción eosinofílica (fig. 1). Los túbulos estaban tapizados por células de cúbicas a columnares, con núcleos redondeados y prominentes nucleolos y apenas mostraban atipia citológica (índice mitótico bajo). El estudio inmunohistoquímico con calretinina, CD99, citoqueratinas de bajo peso, inhibina, receptores de andrógenos, progesterona y vimentina apoyó la sospecha histológica (fig. 2).

Ante el hallazgo postoperatorio, se solicitaron marcadores tumorales ováricos y se propuso a la paciente una segunda intervención, dada la extirpación incompleta del tumor.

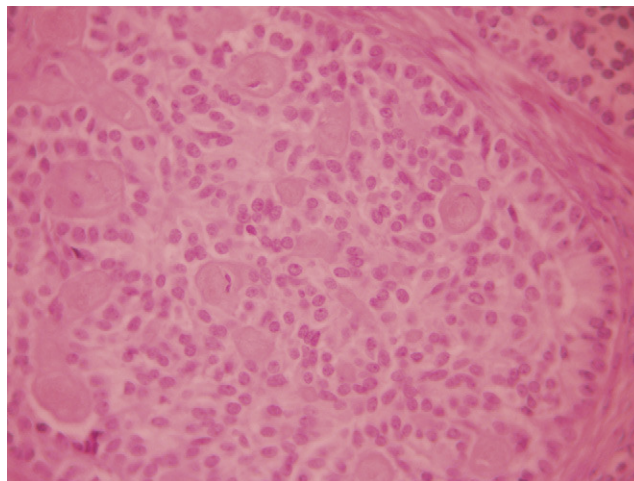


Figura 1 La neoplasia se caracteriza por una arquitectura nodular separada por bandas fibrosas separadas por lóbulos constituidos por túbulos sólidos que muestran en la luz una secreción eosinofílica.

De los marcadores tumorales ováricos, la alfafetoproteína, la beta-HCG y el CEA eran normales, pero el Ca 125 era de 66,20 μ U/ml (valores normales hasta 35) y el Ca 19.9 de 43,76 U/ml (valores normales hasta 37).

En la ecografía transvaginal posquirúrgica se continuó observando una imagen hiperecogénica de 1,7 cm en el polo apical del ovario izquierdo, con sombra posterior.

Se completó la intervención quirúrgica con una laparoscopia con biopsia intraoperatoria, que finalizó en ovariectomía dado que los márgenes de las tumorectomías estaban afectados.

La anatomía patológica tras la segunda intervención confirmó el diagnóstico previo.

Se realizaron controles trimestrales con marcadores tumorales, hasta el momento negativos, y una ecografía transvaginal, sin hallazgos de interés clínico.

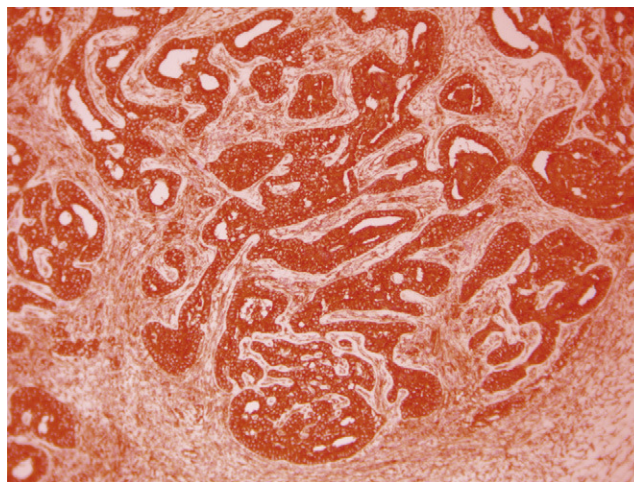


Figura 2 El estudio inmunohistoquímico con inhibina confirma el diagnóstico.

Discusión

Los tumores de células de Sertoli-Leydig contienen células de Sertoli, células de Leydig, o ambas, en proporciones variables y con diversos grados de diferenciación⁷.

Según la clasificación de la Organización Mundial de la Salud, los tumores derivados de las células de Sertoli-Leydig tienen 6 variantes histológicas. Los bien diferenciados, que suponen sólo un 11% y muestran un patrón de crecimiento de tipo tubular, están compuestos por túbulos de células Sertoli-like separados por un número variable de células Leydig-like. Este es el tipo que presentaba la paciente. También los hay moderadamente diferenciados (54%), pobremente diferenciados o sarcomatoides (13%), tumores puros de Sertoli, tumores con elementos heterólogos (22%), los de patrón retiforme (15%) y de tipo mixto.

Los tres marcadores inmunohistoquímicos más importantes de este tumor son el EMA, la inhibina y la cromogranina, sobre todo para establecer el diagnóstico diferencial con el carcinoma endometrioide, cuyas glándulas se pueden confundir con los túbulos descritos. Otro tumor con el que hay que establecer el diagnóstico diferencial es el tumor carcinomateoso de tipo trabecular⁸. Por último, el tumor de Krukenberg de tipo tubular puede recordar al tumor de Sertoli-Leydig, en especial cuando el estroma está luteinizado. Otros diagnósticos diferenciales son con el tumor de la granulosa del adulto, los tumores de origen wolffiano y el disgerminoma.

Suele estar confinado al ovario y tener un comportamiento benigno. Los mejores marcadores para identificar un mal pronóstico son la atipia nuclear, tener más de 5 mitosis por campo y la necrosis celular.

El pronóstico es generalmente, bueno y se correlaciona con el estadio y el grado de diferenciación del tumor. La cirugía conservadora está indicada en mujeres jóvenes con tumores de Sertoli-Leydig confinados al ovario⁴.

Ante el primer diagnóstico histológico, se decidió llevar a cabo una segunda cirugía puesto que no se había resecado el tumor en su totalidad. El tipo de intervención que se debe realizar (anexectomía frente a ovariectomía o tumorectomía) depende de la edad de la paciente, su deseo genésico y la patología concomitante (en este caso endometriosis). Sabiendo la elevada probabilidad de benignidad por el número de mitosis y su grado de diferenciación, y la baja tasa de bilateralidad descrita en la literatura, una cirugía conservadora era factible.

Se propuso para la realización de una tumorectomía con biopsia intraoperatoria, dada la existencia de una endometriosis de grado IV y el escaso parénquima ovárico contralateral tras la extirpación del endometrioma en la primera intervención. Los márgenes sucesivamente afectados obligaron, tras

una resección amplia del ovario, a la realización de una ovariectomía.

Se plantea un seguimiento estrecho mediante marcadores tumorales y una ecografía transvaginal trimestrales. Dado que la analítica previa no presentaba elevación más que de los marcadores séricos CA 125 y CA 199, el seguimiento se realizó mediante estos parámetros.

Conclusión

Una cirugía conservadora es factible en pacientes con tumores ováricos de células de Sertoli-Leydig sin deseo genésico cumplido, siempre que se trate de tumores bien diferenciados y se lleve a cabo el seguimiento posquirúrgico correcto.

Solo el 2-3% de los tumores de células de Sertoli-Leydig presentan progresión extraovárica en el momento del diagnóstico y menos del 20% presenta un comportamiento maligno⁹.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Grove A, Vestergaard V. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumour of intermediate grade with heterologous elements of rhabdomyosarcoma. A case report and review of the literature. *Ann Diagnostic Pathol.* 2006;10:288–98.
2. Kurgan RJ. Sex cord-stromal, steroid cell, and other ovarian tumours with endocrine, paraendocrine, and paraneoplastic manifestations. En *Blasteni's pathology of the female tract*, 4th ed. New York: Springer-Verlag. 1994.
3. Zung A, Shoham Z, Open M. Sertoli cell tumour causing precocious puberty in a girl with peutz-jeghers syndrome. *Gynecol Oncol.* 1998;70:421–4.
4. Rosai and Ackerman's. *Surgical Pathology*. 9th ed. New York: Ed. Mosby; 2004.
5. Caringella A, Loizzi V, Resta L. A case of Sertoli-Leydig cell tumour in a postmenopausal woman. *Int J Gynecol Cancer.* 2006;16:435–8.
6. Chen FY, Sheu BC, Lin MC, Formos J. Sertoli-Leydig cell tumour of the ovary. *Med Assoc.* 2004;103:388–91.
7. Di Saia S, Creasman M. Tumores de células germinales, estromales y otros tumores ováricos. En *Oncología Ginecológica Clínica*, 6.a ed. Madrid: Editorial Harcourt. 2002.
8. Oliva E, Alvarez T, Young R. Sertoli cell tumours of the ovary: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 54 cases. New York: Lippincott Williams & Wilkins, Inc. 2005. p. 143–56.
9. Fernández Corona. Tumor de células de Sertoli-Leydig ovárico. *Prog Obstet Ginecol.* 2007;50:700–5.