

## Estruma ovárico maligno metastásico: 2 escenarios de una misma enfermedad



### Metastatic malignant struma ovarii: Two scenarios of the same pathology

El estruma ovárico es la presencia de tejido tiroideo como componente mayoritario de un teratoma ovárico. Constituye el 0,3-1% de los tumores de ovario y el 2-4% de los teratomas ováricos<sup>1,2</sup>. Para diagnosticar el estruma ovárico el tejido tiroideo debe representar más del 50% del total del teratoma. La presentación clínica es muy variable, desde tumores benignos asintomáticos hasta los que se presentan con enfermedad a distancia. Aproximadamente el 5-10% de los casos son tumores malignos y un 5% de estos presentan metástasis a distancia al diagnóstico<sup>3-6</sup>.

Al igual que en los tumores localizados en el tiroides, los tipos histológicos más frecuentes son el carcinoma papilar y el folicular. Otras variantes más agresivas son extremadamente raras<sup>7</sup>.

El manejo del estruma ovárico maligno resulta controvertido<sup>8-10</sup>. En los casos de enfermedad metastásica, la cirugía ginecológica debe ser agresiva y se recomienda completar el tratamiento con I<sup>131</sup> al igual que en el carcinoma diferenciado de tiroides (CDT), para lo cual se requiere previamente la realización de una tiroidectomía total<sup>6</sup>. En algunas ocasiones se ha descrito la coexistencia de estruma ovárico maligno con CDT en la glándula tiroidea<sup>9</sup>. Posteriormente es recomendable el tratamiento supresor con levotiroxina. Debido al riesgo de recidiva a largo plazo, el seguimiento, al igual que en el CDT, debe realizarse con mediciones periódicas de tiroglobulina basal y estimulada, anticuerpos anti-tiroglobulina y pruebas de imagen en el caso de sospecha de recidiva local o enfermedad a distancia<sup>8,10</sup>.

A continuación, presentamos los casos de 2 mujeres diagnosticadas de estruma ovárico maligno metastásico cuya presentación clínica fue la de una tumoración ovárica sospechosa.

La primera paciente de 57 años consultó por fiebre, dolor y distensión abdominal. En la tomografía computarizada (TC) solicitada se observó una masa sólido-quística que dependía del ovario izquierdo.

En la analítica presentaba elevación en los marcadores tumorales: CA-125: 1.510 U/ml (valor normal [VN]: 2-24), CA 15.3: 58,3 U/ml (VN: 9-42). Ante la sospecha de una neoplasia maligna de ovario se realizó anexectomía bilateral mediante laparotomía, sin visualizarse implantes peritoneales macroscópicos. El análisis histológico reveló la presencia de estruma ovárico con transformación maligna en el anejo izquierdo; se trataba de un carcinoma papilar variante folicular de 10 cm, con focos de carcinoma pobremente diferenciado, que infiltraba la cápsula e invadía vasos sanguíneos. En el ovario derecho se observó un foco de 2,5 mm de carcinoma pobremente diferenciado probablemente tiroideo.

Teniendo en cuenta el diagnóstico se realizó tiroidectomía total con resultado histológico de hiperplasia multinodular sin signos de malignidad. Posteriormente, la paciente recibió tratamiento con 105 mCi de I<sup>131</sup>.

El rastreo corporal posterior mostró un depósito cervical en relación con remanente tiroideo (fig. 1A). Se indicó tratamiento con levotiroxina 175 µg/día para mantener suprimidos los niveles de TSH. Tras la cirugía, el CA-125 disminuyó a 89,4 U/ml; el CA 15.3, los niveles de tiroglobulina y de anticuerpos anti-tiroglobulina fueron indetectables.

A pesar de ello, 4 meses más tarde la paciente consultó nuevamente por ascitis y se detectó recidiva de la enfermedad. En el TC realizado se observaron implantes peritoneales y múltiples metástasis hepáticas. Se decidió iniciar tratamiento quimioterápico con cisplatino y adriamicina por tratarse de un carcinoma pobremente diferenciado y refractario al tratamiento convencional. La evolución fue desfavorable y la paciente falleció 18 meses después del diagnóstico.

La segunda paciente de 48 años consultó por dolor y distensión abdominal. En la TC se observó una neoplasia de anejo derecho con abundante líquido libre intraabdominal y múltiples implantes peritoneales. En la analítica presentó: CA-125: 1.351 U/ml (VN: 0-35 U/ml).

Se realizó laparoscopia exploradora con toma de múltiples biopsias. En el análisis histológico se objetivó la presencia de tejido tiroideo maduro. Ante la sospecha de estruma ovárico maligno metastásico se realizó histerectomía total, anexectomía bilateral, exéresis de implantes y tiroidectomía total en el mismo acto quirúrgico. La función tiroidea prequirúrgica era normal.

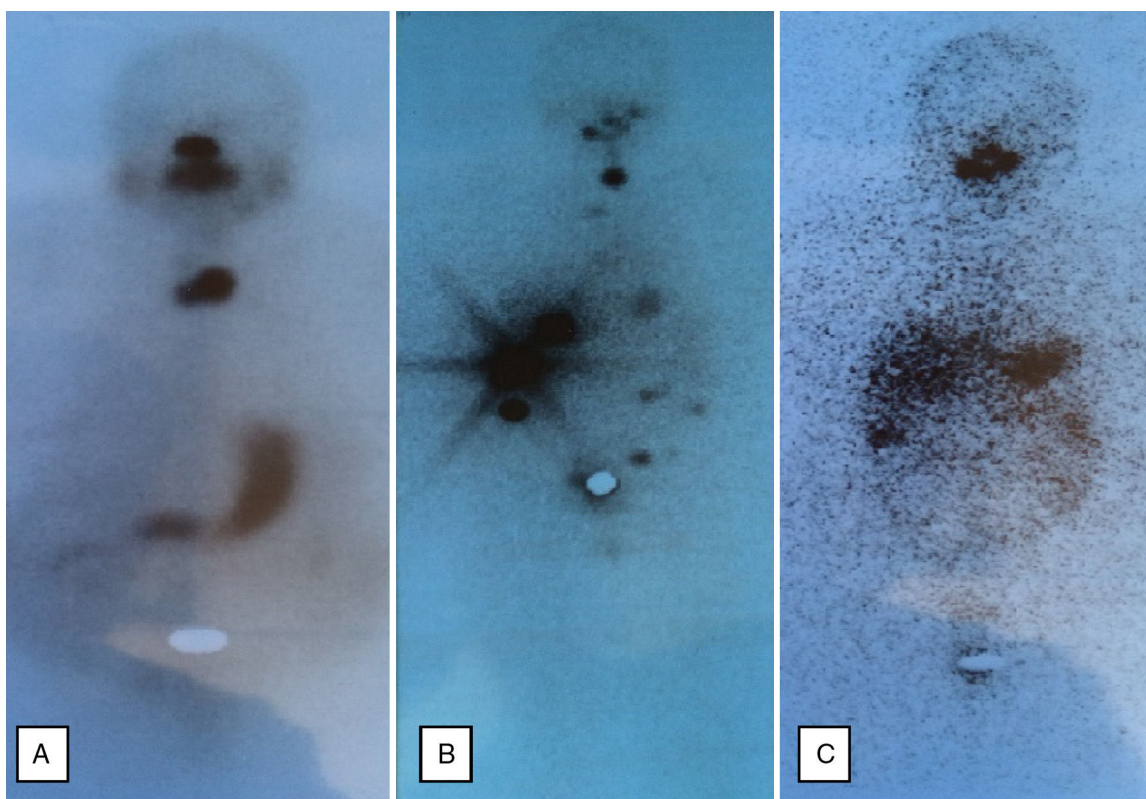
En ovario derecho y en los implantes se observó la presencia de estruma ovárico de 10 cm con transformación maligna: hiperplasia nodular con áreas de carcinoma papilar variante folicular. En el estudio histológico del tiroides se observó atrofia tiroidea con fibrosis e intensa tiroiditis linfocítica. Posteriormente, recibió tratamiento con 57 mCi de I<sup>131</sup>. El rastreo corporal total tras el I<sup>131</sup> mostró captación en remanente tiroideo y 6 depósitos de localización peritoneal (fig. 1B).

Comenzó tratamiento con levotiroxina 100 µg/día para mantener la TSH suprimida. A los 6 meses, ante la presencia de tiroglobulina basal de 28 µg/l (VN: <0,2) y anticuerpos anti-tiroglobulina elevados (81,52 UI/ml; VN: 0-4,2) se decidió administrar una nueva dosis de 56,7 mCi de I<sup>131</sup>. En el rastreo corporal posterior únicamente se observó persistencia de 2 implantes peritoneales (fig. 1C).

Doce meses después de la segunda dosis de I<sup>131</sup> los niveles de tiroglobulina basal y estimulada fueron indetectables (<0,2 µg/l) y se negativizaron los anticuerpos anti-tiroglobulina. Los niveles de CA-125 se normalizaron durante el seguimiento.

La paciente continúa controles periódicos con criterios de curación (tiroglobulina basal y estimulada indetectable, ausencia de captación en rastreo corporal y TC abdominal sin hallazgos patológicos) tras un seguimiento de 3 años desde el diagnóstico.

Estos casos nos resultan de especial interés ya que ambas pacientes presentaron una evolución muy diferente tras el diagnóstico de estruma ovárico maligno metastásico. En el primer caso, la existencia de áreas de carcinoma pobremente diferenciado junto con la infiltración capsular y vascular explica la mala evolución que llevó al fallecimiento de la paciente. Estudios recientes sugieren que la presencia de un componente pobremente diferenciado conlleva un



**Figura 1** A) Rastreo tras el tratamiento con  $I^{131}$  en la primera paciente. B) Rastreo tras el primer tratamiento con  $I^{131}$  en la segunda paciente. C) Rastreo tras el segundo tratamiento con  $I^{131}$  en la segunda paciente.

peor pronóstico<sup>7</sup> y explicaría asimismo la ausencia de captación en el rastreo corporal post- $I^{131}$  y la falta de elevación de los niveles de tiroglobulina. En el segundo caso se trata de un tumor bien diferenciado con buena respuesta al tratamiento convencional y con criterios de curación en el momento actual. En ninguno de los casos se observó enfermedad maligna tiroidea sincrónica.

Existen pocos trabajos sobre el estruma ovárico maligno metastásico, dado lo infrecuente de la enfermedad. Como se observa en nuestro trabajo la histología del tumor resulta fundamental para poder tomar las decisiones clínicas más adecuadas durante la evolución de la enfermedad.

## Bibliografía

1. Bocker W. WHO classification of breast tumors and tumors of the female genital organs: Pathology and genetics. *Verh Dtsch Ges Pathol.* 2002;86:116–9 [Article in German].
2. Yassa L, Sadow P, Marqusee E. Malignant struma ovarii. *Nat Clin Pract Endocrinol Metab.* 2008;4:469–72.
3. Goffredo P, Sawka AM, Pura J, Adam MA, Roman SA, Sosa JA. Malignant struma ovarii: A population-level analysis of a large series of 68 patients. *Thyroid.* 2015;25:211–5.
4. Dardik RB, Dardik M, Westra W, Montz FJ. Malignant struma ovarii: Two case reports and a review of the literature. *Gynecol Oncol.* 1999;73:447–51.
5. Mandic A, Rajovic J, Tesic M, Vujkov T, Krnojelac D, Komazec S. Benign and malignant struma ovarii: report of three cases and review of the literature. *J BUON.* 2002;7:67–70.
6. Marcy PY, Thariat J, Benisvy D, Azuar P. Lethal, Malignant metastatic struma ovarii. *Thyroid.* 2010;20:1037–40.
7. Fukunaga M, Ishibashi T, Koyama T, Onoue K, Kitai S, Tanaka K, et al. Malignant struma ovarii with a predominant component of anaplastic carcinoma. *Int J Gynecol Pathol.* 2016;35:357–61.
8. Shrimali RK, Shaikh G, Reed NS. Malignant struma ovarii: The west of Scotland experience and review of literature with focus on postoperative management. *J Med Imaging Radiat Oncol.* 2012;56:478–82.
9. Leong A, Roche PJR, Paliouras M, Rochon L, Trifiro M, Tamielia M. Coexistence of malignant struma ovarii and cervical papillary thyroid carcinoma. *J Clin Endocrinol Metab.* 2013;98:4599–605.
10. DeSimone CP, Lele SM, Modesitt SC. Malignant struma ovarii: A case report and analysis of cases reported in the literature with focus on survival and  $I^{131}$  therapy. *Gynecol Oncol.* 2003;89:543–8.

Ander Ernaga Lorea<sup>a,\*</sup>, Maria Cecilia Hernández Morhain<sup>a</sup>, Emma Anda Apiñániz<sup>a</sup>, Sonia Lapeña Calavia<sup>b</sup> y Nerea Eguílaz Esparza<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Servicio de Endocrinología y Nutrición, Complejo Hospitalario de Navarra, Pamplona, Navarra, España

<sup>b</sup> Servicio de Ginecología y Obstetricia, Complejo Hospitalario de Navarra, Pamplona, Navarra, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [andernaga@hotmail.es](mailto:andernaga@hotmail.es) (A. Ernaga Lorea).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.endinu.2016.09.008>  
2530-0164/

© 2017 SEEN. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.