

Tumor ovárico *borderline* en paciente pediátrico. Reporte de caso

Viviana Barragán-Arévalo, Sebastián Ruiz-Gutiérrez, Ivette C. Jiménez-Lafourie* y Juan P. Luengas-Monroy

Departamento de Cirugía Pediátrica, Hospital Militar Central, Universidad Militar Nueva Granada, Bogotá, Colombia

Resumen

Objetivo: Presentar el caso de una paciente premenárquica con diagnóstico de tumor de ovario *borderline*.

Materiales y métodos: Se presenta el caso de una paciente con una masa dependiente de anexo derecho con diagnóstico de tumor de ovario *borderline* por marcadores tumorales y posterior confirmación histopatológica. **Resultados:** Se realizó una cirugía de precisión con preservación de la fertilidad con un postoperatorio satisfactorio con egreso al tercer día sin complicaciones. **Conclusiones:** Los tumores de ovario limítrofes son infrecuentes en la población pediátrica, tienen buen pronóstico y altas tasas de supervivencia con un diagnóstico y manejo quirúrgico adecuado para poder preservar la fertilidad.

Palabras clave: Cáncer. Enfermedades del ovario. Tumor de ovario. Fertilidad. Menarquia.

Borderline ovarian tumor in a pediatric patient. Case report

Abstract

Objective: To present the case of a premenarchal female patient diagnosed with borderline ovarian tumor.

Materials and methods: We present the case of a female patient with a mass dependent on the right ovary, with diagnosis of a borderline ovarian tumor by tumoral markers and histopathological confirmation. **Results:** We performed precision surgery with fertility preservation. The patient had a satisfactory postoperative period and was discharged on the third day without complications. **Conclusions:** Borderline ovarian tumors are infrequent in the pediatric population. These tumors have a good prognosis and high survival rates with adequate diagnosis and surgical management to preserve fertility.

Keywords: Cancer. Ovarian diseases. Ovarian tumor. Fertility. Menarche.

*Correspondencia:

Ivette C. Jiménez-Lafourie
E-mail: ivettejl97@gmail.com

Fecha de recepción: 29-09-2022

Fecha de aceptación: 02-11-2022

DOI: 10.24875/j.gamo.220001251

Disponible en internet: 19-07-2023

Gac Mex Oncol. 2023;22(Supl):84-88

www.gamo-smeo.com

2565-005X/© 2022 Sociedad Mexicana de Oncología. Publicado por Permanyer. Este es un artículo *open access* bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

Los tumores de ovario limítrofes, o *borderline* (BOT), son lesiones de origen epitelial con un comportamiento que varía de lesiones benignas hasta carcinoma invasor de ovario¹. Estos tumores epiteliales son raros en la niñez y aún más raros en pacientes premenárquicas². Histológicamente, de acuerdo con los criterios descritos por Hart y Norris, presentan atipia nuclear, alto índice mitótico que los diferencia de tumores benignos y ausencia de invasión del estroma³. Se estima que más de 200,000 mujeres desarrollan cáncer de ovario cada año en el mundo. En el caso de los tumores malignos primarios, el 70% son de origen epitelial y de estos, un 20% de bajo potencial maligno, denominados BOT⁴.

El término «tumor de ovario límite» fue utilizado por primera vez por Taylor en 1929. Este se refería a masas ováricas con componentes diferentes a las lesiones benignas y malignas en cuanto a histología y comportamiento. En 1972, la Federación Internacional de Ginecología y Obstetricia (FIGO) introduce el término «tumor con bajo potencial maligno» en la literatura y finalmente la Organización Mundial de la Salud (OMS) define estas lesiones como BOT, término actualmente utilizado. La mayoría de los BOT son de tipo seroso y mucinoso (40-50%), sin embargo pueden ser de célula clara, de Brenner, mixtos o de transición⁵.

La clínica de los tumores de ovario suele ser inespecífica. En el caso de los BOT el aumento de la circunferencia o masa abdominal está presente en el 50% de los casos asociado a dolor abdominal como el síntoma más común. El diagnóstico se basa en la sospecha clínica, los marcadores tumorales e imágenes diagnósticas, y termina con la confirmación patológica. En los casos en que los BOT requieren manejo quirúrgico, este debe ir dirigido a la preservación de la fertilidad⁶.

Los factores hormonales y ambientales parecen no tener asociación en la población pediátrica, sin embargo el 5% de estas neoplasias tienen predisposición hereditaria, principalmente por alteración en la diferenciación de la célula germinal primitiva⁷. La mayor incidencia de tumores epiteliales de ovario es en niñas menárquicas y se cree que es el resultado de la estimulación hormonal con interrupción y reparación repetidas del epitelio ovárico por la ovulación⁸.

Presentación del caso

Se presenta el caso de una paciente de nueve años con cuadro de siete meses de evolución de masa

abdominal, dolor abdominal intermitente y polaquiuria. Al examen físico se palpa masa lobulada en hemiabdomen inferior, predominantemente izquierdo, dura, con tamaño aproximado de 20 x 10 cm. Reporte de ecografía de abdomen con evidencia de ovario derecho de 153 x 89 x 89.6 mm para un volumen de 640 cc en su interior con quiste complejo multilocular de 146 x 76.9 mm con una formación sólida en su interior de 18.9 x 7 mm con un tabique de 3.3 mm con vascularización periférica en su interior. Se solicitó tomografía computarizada (TC) de abdomen contrastado (Fig. 1), encontrando masa multilobulada multiseptada con calcificaciones, nódulos sólidos murales dependientes de los septos y paredes, contenido heterogéneo de predominio hipodenso que ocupa parte del flanco y fosa ilíaca izquierdas rechazando las asas intestinales y el fondo de la vejiga urinaria, ejerciendo efecto compresivo sobre el uréter izquierdo con dilatación pieloureteral grado I, masa que mide 160 x 90 x 95 mm y de probable origen anexial. Marcadores tumorales con CA125 elevada en 1,260, hormona gonadotropina coriónica humana fracción beta (β -HCG), antígeno carcinoembrionario y alfafetoproteína (AFP) en rango normal.

Por estos hallazgos se realiza cirugía de precisión por laparotomía, encontrando un tumor dependiente de ovario derecho de 20 x 15 cm, de características mixtas (sólida y quística), con vegetaciones en su cápsula y un importante proceso inflamatorio y desmoplásico que comprometía la fosa pélvica, ligamento ancho y ligamento redondo derecho. El ovario izquierdo era poli-quístico, con una lesión mayor de 5 x 5 cm y múltiples lesiones menores subcentimétricas, sin observarse implantes peritoneales ni compromiso intraabdominal macroscópico (Fig. 2). Adicionalmente, múltiples ganglios paracavos derechos subcentimétricos. No se realizó apendicectomía por antecedente quirúrgico previo.

La paciente tuvo una evolución postoperatoria sin novedades y egresó al tercer día postoperatorio. Reporte de patología: tumor seroso proliferativo atípico *borderline* de 15.5 cm de diámetro, con cápsula íntegra y compromiso de la superficie ovárica. El quiste ovárico izquierdo y parénquima ovárico izquierdo evidenciaron un cistadenoma seroso de 4.6 cm de diámetro.

Materiales y métodos

Con previo consentimiento obtenido de la madre de la paciente menor de edad y siguiendo todos los protocolos éticos e institucionales, se realiza un estudio descriptivo tipo reporte de caso de una paciente

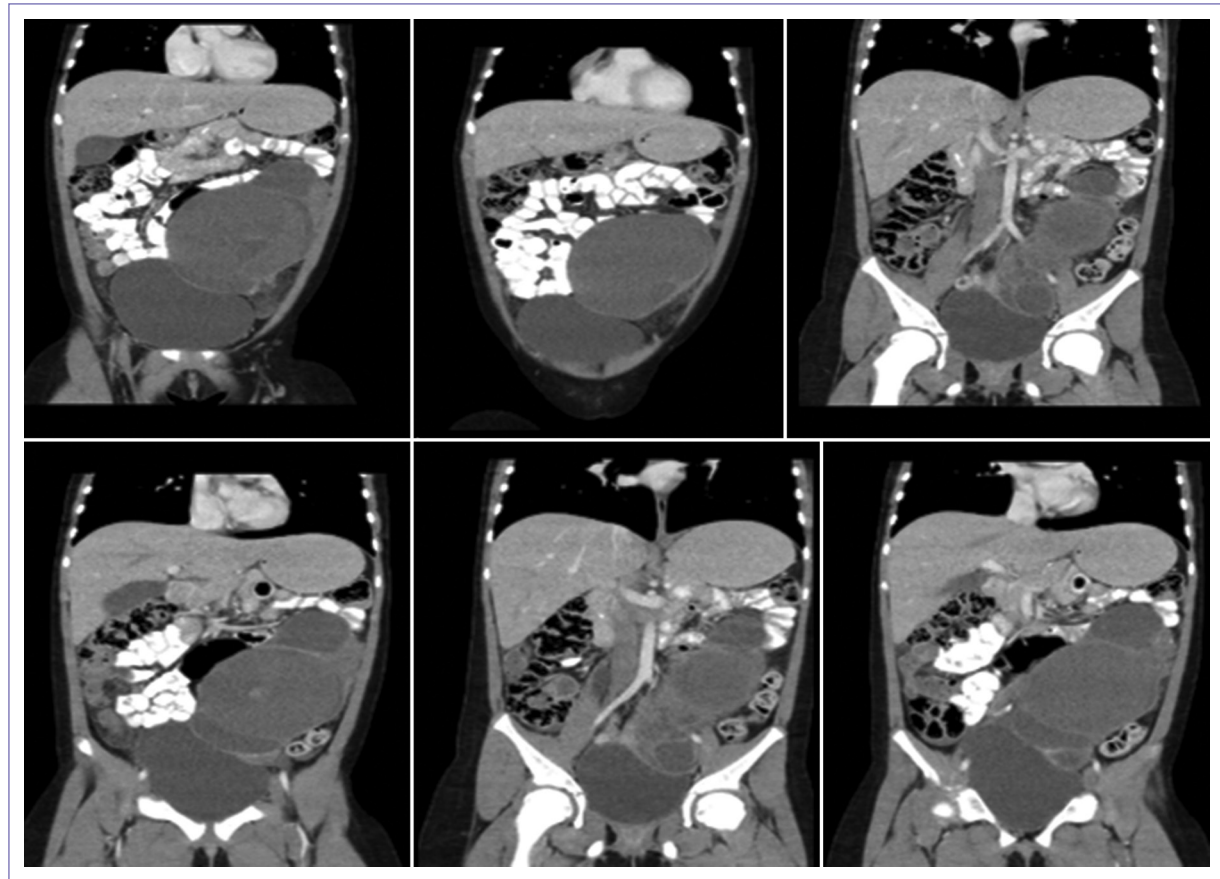


Figura 1. Tomografía computarizada de abdomen. Masa multilobulada multiseptada con calcificaciones puntiformes periféricas en su interior, nódulos sólidos murales dependientes de los septos y paredes, contenido heterogéneo de predominio hipodenso que ocupa parte del flanco y fosa ilíaca izquierdas, de probable origen anexial izquierdo.

atendida en un hospital de 4.º nivel de complejidad. Se analizó: historia clínica, imágenes, laboratorios y estudio histopatológico.

Discusión

En la población pediátrica, los BOT se consideran infrecuentes⁹, representan del 1 al 5% de todas las neoplasias. La presentación se da de forma bimodal: entre los 2-3 años y entre los 12-15 años, con un pico máximo de incidencia en la adolescencia con más del 50% de los casos¹⁰. La mayoría de las lesiones de los anexos son quistes funcionales y solo el 10% son lesiones malignas¹¹.

Los BOT representan del 10 al 20% de los tumores ováricos epiteliales, siendo más frecuentes en menores de 18 años, con mayor incidencia que los carcinomas^{11,12}. La incidencia aumenta con la edad y está en relación con la menarquia². La mayoría suelen ser de bajo grado, por lo tanto, tienen mejor pronóstico en

comparación con mujeres adultas, aún con histología similar¹³.

Histológicamente, el subtipo más común es el seroso, seguido por los de tipo mucinoso (43-53% y 42-52% respectivamente). De los serosos, muchos son bilaterales y presentan implantes peritoneales, a diferencia del subtipo mucinoso, donde la incidencia de bilateralidad y diseminación extraovárica es menor⁵.

En cuanto a la clínica, los BOT se caracterizan por iniciar con un aumento de la circunferencia o masa abdominal en el 50% de los casos, con dolor y distensión abdominal; el hallazgo incidental se presenta solo en el 7%¹⁴. En estadios avanzados puede haber ascitis, en tumores de gran tamaño existe correlación con alteraciones en el ciclo menstrual⁴ y en pocos casos se observa torsión del tumor de ovario¹⁵. Adicionalmente, el 90% de las masas son unilaterales, predominantemente en el ovario derecho con respecto al izquierdo (75 vs. 15% respectivamente)⁹.

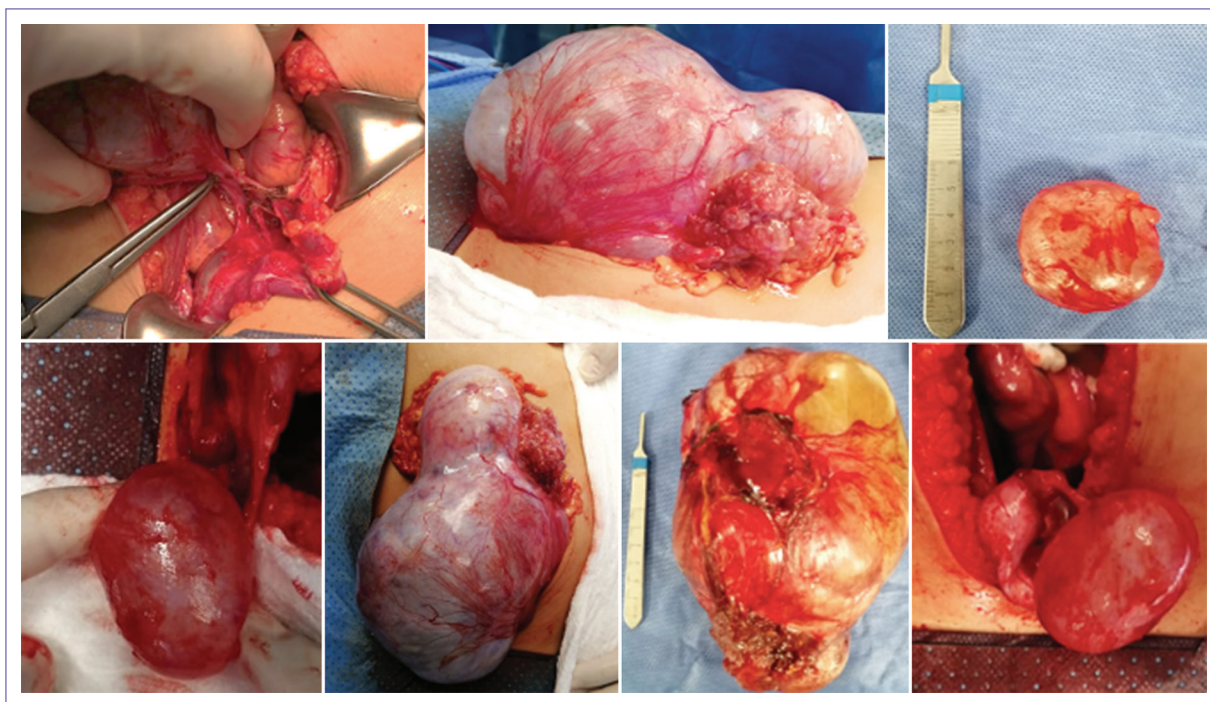


Figura 2. Hallazgos quirúrgicos.

Para el diagnóstico, la ecografía abdominal ayuda a diferenciar masas quísticas o sólidas, la TC para descartar extensión y realizar estadificación y la resonancia magnética para lesiones indeterminadas o cuando existe duda del origen de la masa y para visualizar relación con estructuras vecinas¹. Radiológicamente, los BOT son una masa anexial compleja, multilobulada con elementos sólidos en su interior (nódulos redondos bien diferenciados, con proyecciones papiliformes o engrosamiento de la pared). La literatura reporta que los nódulos y el grosor de los septos son más grandes en tumores malignos que en los BOT, sin embargo es difícil diferenciar por resonancia magnética los tumores *borderline* de los tumores invasivos malignos en etapa temprana^{4,13}. Se ha logrado mejorar la diferenciación con medio de contraste, no obstante, la información es limitada.

Respecto a los marcadores tumorales, el CA125 está elevado en el 54% de los casos con β -HCG, AFP y la inhibina B normales, y elevación del CA199 en un 16.6% de los casos^{9,16}.

Para su tratamiento integral se incluye tanto la extirpación completa de todas las lesiones tumorales macroscópicas dentro del abdomen como una estadificación completa según la clasificación de la FIGO¹⁷, que, junto al tipo histológico y la edad de la paciente,

sirven para conocer el pronóstico. En cuanto al manejo quirúrgico, la cirugía preservadora de fertilidad consiste en realizar salpingooforectomía unilateral o cistectomía en estadios tempranos del tumor¹⁸, sin embargo existe controversia en cuanto al manejo adecuado, pues se ha descrito que la cistectomía aumenta la recurrencia del tumor aproximadamente a un 33.5% a 10 años, mientras que con la cirugía radical la recurrencia es del 12%. No se ha mostrado diferencia en la tasa de embarazo entre estos dos procedimientos¹⁹.

Se debe realizar una ooforectomía o salpingooforectomía con lavado peritoneal y análisis citológico del líquido, biopsia de epiplón y apendicectomía si se trata de un BOT mucinoso para excluir la posibilidad de metástasis ovárica de tumores mucinosos del apéndice^{2,17}.

La supervivencia de los BOT serosos es alta, con tasas a los cinco años entre el 88-95% de acuerdo con la FIGO¹². Con respecto a los estadios, las tasas a cinco y 10 años para los estadios I, II y III son aproximadamente del 99, 97 y 98% frente al 90, 96 y 88% respectivamente⁵. Menos del 1% de las adolescentes presentan recaídas en forma de nuevo BOT o como tumor invasivo³. La probabilidad de recurrencia en forma de carcinoma invasivo es menos del 1% en el estadio I, sin embargo en estadios avanzados la probabilidad de recurrencia es del 30-54%⁴.

Resultados

A pesar de la controversia en cuanto al manejo de los BOT, se consideró pertinente la realización de cirugía de precisión para conservación de la fertilidad de esta paciente, obteniendo excelentes resultados postoperatorios, con egreso temprano y con reporte de biopsia positivo y consistente en BOT.

Conclusiones

Los BOT son infrecuentes en la población pediátrica con una clínica de presentación similar a otras patologías por lo que siempre deben ser diagnóstico diferencial. A pesar de su baja incidencia, estos tumores tienen buen pronóstico y altas tasas de supervivencia, por lo que es necesario hacer un diagnóstico y manejo quirúrgico adecuado para poder preservar la fertilidad.

Financiamiento

La presente investigación no ha recibido ninguna beca específica de agencias de los sectores públicos, comercial o con ánimo de lucro.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el

artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Bibliografía

1. Cisterna CP, Orellana HR, Freire HA. Tumor ovárico de bajo potencial maligno (borderline): Patrón seroso micropapilar. *Rev Chil Obstet Ginecol.* 2007;72(4):241-6.
2. Olszewska H, Abacjew-Chmylko A, Sawicki S, Olszewski J, Wydra DG. Conservative treatment of borderline ovarian tumors: The experience of one clinical center. *Ginek Pol.* 2015;86(9):653-8.
3. Artucio S, Alejandra Cifuentes M. Borderline ovarian tumor in adolescence: report of two cases and review of the literature. *Int J Radiat Ther.* 2018;5(2):168-70.
4. Höhne S, Milzsch M, Stiefel M, Kunze C, Hauptmann S, Finke R. Ovarian borderline tumors in pre-menarche girls. *Pediatr Hematol Oncol.* 2013;30(4):253-62.
5. Yilmaz E, Sahin N, Koleli I, Melekoglu R, Tanrikut E, Faydali S, et al. Retrospective analysis of borderline ovarian tumors: Outcomes at a single center. *Acta Clin Croat.* 2019;58(1):29-36.
6. Xac MC, Jetelina KK, Jarín J, Wilson E. Benign, borderline, and malignant pediatric adnexal masses: A 10-year review. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2021;34(4):454-61.
7. Bautista Moreno D, Ariza-Varon M, Medina-Vega DL, Restrepo-Ángel F, Linares-Ballesteros A, Jaramillo LE, et al. Gonadal germ cell tumors in children: Experience of 20 years in a pediatric referral center. *Rev Fac Med.* 2015;63(1):47-56.
8. Childress KJ, Patil NM, Muscal JA, Dietrich JE, Venkatramani R. Borderline ovarian tumor in the pediatric and adolescent population: A case series and literature review. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2018;31(1):48-54.
9. Xu M, Wang B, Shi Y. Borderline ovarian tumor in the pediatric and adolescent population: a clinicopathologic analysis of fourteen cases. *Int J Clin Exp Pathol.* 2020;13(5):1053-9.
10. Vázquez Rueda F, Murcia Pascual FJ, Siu Uribe A, Ortega Salas RM, Escassi Gil Á, Garrido Pérez JI, et al. Análisis de los tumores sólidos ováricos pediátricos en nuestra población. *An Pediatr.* 2020;92(2):88-93.
11. Mărginean CO, Mărginean C, Chinceșan M, Mărginean MO, Meli LE, Săsăran V, et al. Pediatric ovarian tumors, a challenge for pediatrician and gynecologist: Three case reports (CARE compliant). *Medicine (Baltimore).* 2019;98(16):e15242.
12. Vancraeynest E, Moerman P, Leunen K, Amant F, Neven P, Vergote I. Fertility preservation is safe for serous borderline ovarian tumors. *Int J Gynecol Cancer.* 2016;26(8):1399-406.
13. Heo SH, Kim JW, Shin SS, Jeong SI, Lim HS, Choi YD, et al. Review of ovarian tumors in children and adolescents: Radiologic-pathologic correlation. *Radiographics.* 2014;34(7):2039-55.
14. Maramai M, Barra F, Menada MV, Stigliani S, Moiola M, Costantini S, et al. Borderline ovarian tumours: Management in the era of fertility-sparing surgery. *Ecancermedicalscience.* 2020;14:1-10.
15. Song T, Choi CH, Lee YY, Kim TJ, Lee JW, Bae DS, et al. Pediatric borderline ovarian tumors: A retrospective analysis. *J Pediatr Surg.* 2010;45(10):1955-60.
16. Wang Q, Yu D, Wang F. Clinical and computed tomographic features of ovarian lesions in infants, children, and adolescents: A series of 222 cases. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2021;34(3):387-93.
17. du Bois A, Trillsch F, Mahner S, Heitz F, Harter P. Management of borderline ovarian tumors. *Ann Oncol.* 2016;27(Supplement 1):i20-2.
18. Tsai HW, Ko CC, Yeh CC, Chen YJ, Twu NF, Chao KC, et al. Unilateral salpingo-oophorectomy as fertility-sparing surgery for borderline ovarian tumors. *J Chinese Med Assoc.* 2011;74(6):250-4.
19. Wang P, Fang L. Salpingo-oophorectomy versus cystectomy in patients with borderline ovarian tumors: a systemic review and meta-analysis on postoperative recurrence and fertility. *World J Surg Oncol.* 2021;19(1):1-8.