

Presentación atípica del síndrome de Meigs: reporte de caso y revisión de la literatura

Guillermo Moreno-Flores^{1*}, Rafael Topete-Estrada¹, Danniela Niebla-Cárdenas¹ y Jorge R. Audifred-Salomón²

¹Laparoscopia Ginecológica; ²Servicio de Ginecología y Obstetricia. Hospital General Manuel Gea González, Ciudad de México, México

Resumen

El síndrome de Meigs (SM) es la asociación de ascitis, derrame pleural y neoplasias ovárica benigna, en el pseudo-Meigs se agrega CA-125 elevado. Presentamos el caso de una mujer de 67 años con masa anexial derecha, marcadores tumorales negativos. Se realiza ooforectomía, reportan cistoadenofibroma seroso. Doce semanas posteriores con distensión abdominal, pérdida de peso, tomografía abdominal con carcinomatosis peritoneal, antígeno CA-125 de 1,063.4 U/L. Segunda visión laparoscopia, sin neoplasia, corroborada por histopatología. Realizar un diagnóstico de SM es sencillo, no así cuando se presenta un caso atípico de pseudo-Meigs. Los artículos mencionan mejoría significativa posterior al manejo quirúrgico.

Palabras clave: Síndrome de Meigs. Antígeno CA-125. Ascitis. Derrame pleural.

Atypical presentation of Meigs syndrome: A case report and literature review

Abstract

Meigs syndrome (MS) is the association of ascites, pleural effusion and benign ovarian neoplasms, the pseudo-Meigs (PMS) adds elevated CA-125. We present the case of a 67-year-old female with a right adnexal mass, negative tumor markers, performed oorectomy reported serous cystadenofibroma. 12 weeks later with abdominal distension, weight loss, abdominal tomography with peritoneal carcinomatosis, CA -125 antigen of 1063.4U/L. Second laparoscopic view, without neoplasia, corroborated by histopathology. Making a diagnosis of MS is simple, but not when an atypical case of Pseudo-Meigs is presented. The articles mention significant improvement after surgical management.

Keywords: Meigs syndrome. CA-125 antigen. Ascites. Pleural effusion.

Introducción

En 1934 Joe Vincent Meigs presentó tres casos de fibromas; fueron Rhoads y Terrell en 1937 quienes denominaron a esta patología como «síndrome de Meigs»¹. El síndrome de Meigs (SM) es un síndrome raro, definido como la asociación de ascitis, derrame pleural y una neoplasia ovárica, comúnmente un

fibroma: tumor sólido, benigno¹ en el que la extirpación del tumor conduce a la resolución completa de los síntomas y signos, sin embargo hoy día la patogenia de este síndrome no se ha aclarado, la fisiopatología más aceptada es un fenómeno vascular².

El síndrome de pseudo-Meigs (SPM) se caracteriza por una tríada de derrame pleural, ascitis y antígeno CA-125 elevado^{3,4}. El SPM debe considerarse un diagnóstico

Correspondencia:

*Guillermo Moreno-Flores

E-mail: gmorenof27@gmail.com

Fecha de recepción: 30-07-2020

Fecha de aceptación: 07-08-2022

DOI: 10.24875/PER.20000017

Disponible en internet: 16-09-2022

Perinatol Reprod Hum. 2022;36(1):21-24

www.perinatologia.mx

0187-5337/© 2022. Instituto Nacional de Perinatología Isidro Espinosa de los Reyes. 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/>).

diferencial. Existen reportes de casos de presentación de ascitis con carcinomatosis peritoneal, donde se inició tratamiento oncológico a base de quimioterapia, y que pudieron resolverse simplemente mediante una miomectomía o histerectomía con ooforectomía laparoscópica³. Los derrames pleurales en ginecología pueden ocurrir en el contexto de: hemotórax catamenial, síndrome de hiperestimulación ovárica, SM y derrame pleural benigno periparto⁵, incluso algunos autores recientemente denominan síndrome de Tjalma (pseudo-pseudo Meigs) cuando se presenta como manifestación inicial de lupus eritematoso sistémico de inicio juvenil⁶.

Presentación del caso

Mujer de 67 años con masa anexial derecha, marcadores tumorales negativos, se realiza ooforectomía derecha laparoscópica, con reporte histopatológico de cistoadenofibroma seroso. Doce semanas posteriores con distensión abdominal progresiva, pérdida de peso no especificada, se realiza tomografía computarizada abdominopélvica que reporta carcinomatosis peritoneal. Ingresa con ascitis en estudio a descartar peritonitis neoplásica vs. probable tuberculosis, lesión renal aguda, anemia y derrame pleural, se realizan dos eventos de paracentesis con líquido de ascitis y toma de citológico, citoquímico, cultivo de líquido negativo a neoplasias, sin crecimiento, GeneXpert negativo. Urología sospecha de lesión ureteral izquierda, pielografía con estenosis de uréter de tercio inferior, se descarta lesión, colocación de catéter JJ derecho. Con marcadores tumorales con incremento importante del antígeno CA-125 de 1,063.4 U/l, se solicitan serología para virus de hepatitis C, B y virus de inmunodeficiencia humana, todas se reportan negativas, con revisión de laminillas del cistoadenofibroma. Se coloca neumokit bilateral, con segunda laparoscopia diagnóstica sin observar neoplasia, biopsias sin neoplasia (Figs. 1-6).

Discusión

El SM consiste en la asociación de tumor benigno de ovario (fibroma, teca, tumor de células de la granulosa o tumor de Brenner) con ascitis e hidrotórax¹. Mientras que Riley menciona que en el SPM el tratamiento debe estar orientado a la etiología subyacente, y los síntomas se resuelven clásicamente dentro de las dos semanas posteriores a la resección quirúrgica del tumor ginecológico⁵, observamos que este tiempo de regresión puede ser mayor. Nuestra paciente previamente se encontraba asintomática e inició los síntomas 12 semanas

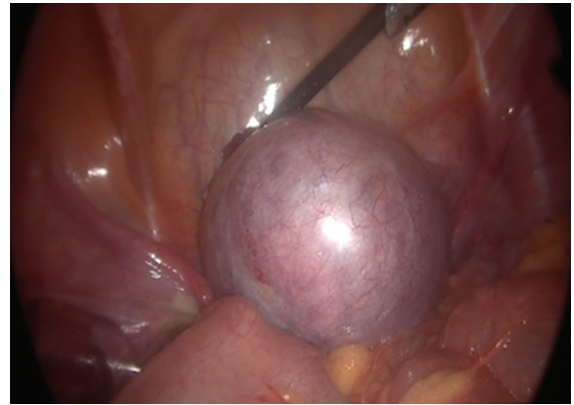


Figura 1. Quiste dependiente de anexo derecho, con adherencias laxas, ausencia de útero.

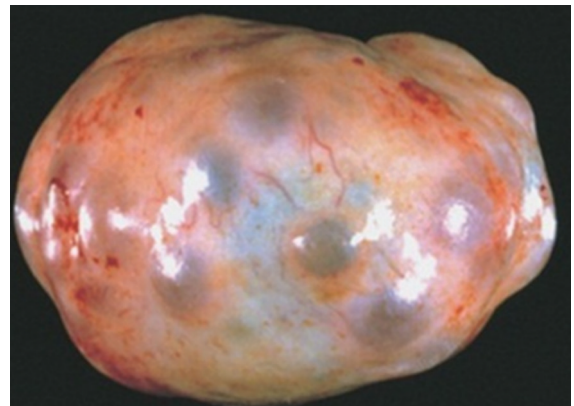


Figura 2. Apariencia macroscópica de un cistoadenofibroma seroso.

posteriores a la cirugía. Ahmed, en enero de 2019, describió un pseudo-pseudo-Meigs o síndrome de Tjalma, que es una nueva manifestación emergente de lupus eritematoso sistémico, caracterizada por la presencia de derrame pleural, ascitis y CA-125⁴.

Rousset menciona que el drenaje venoso y linfático podría contribuir al edema estromal y genera transudación importante en casos de torsión anexial², donde la liberación vascular y linfática permiten una regresión del síndrome. Este mecanismo podría estar asociado con nuestra paciente, probablemente por la liberación sistémica de células del fibroma, con factores de crecimiento y citocinas a nivel sistémico y que por ello los síntomas se presentaron posterior a la cirugía. Sánchez-Torres en 2016 menciona que el SM es una enfermedad con excelente pronóstico y curación



Figura 3. Datos de carcinomatosis peritoneal.



Figura 5. Hidronefrosis y estenosis del uréter.

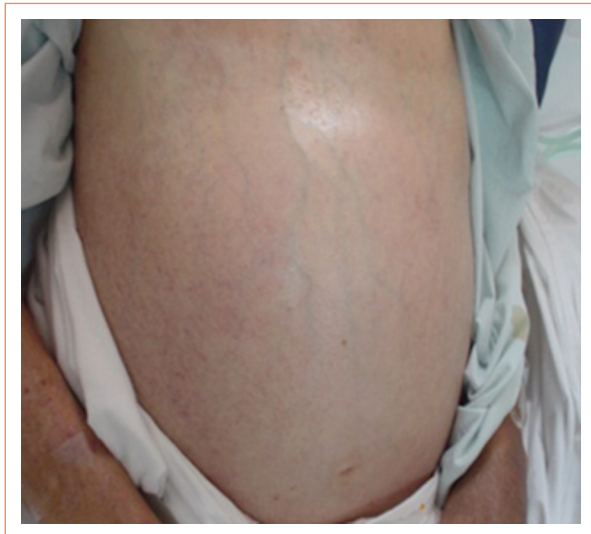


Figura 4. Presencia de ascitis abdominal.



Figura 6. Derrame pleural derecho que requiere colocación de neumokit.

completa de los síntomas después de la extirpación quirúrgica de la tumoración ovárica⁷, sin embargo cuando los síntomas se presentan posterior a la resección quirúrgica, aun desconocemos el mecanismo fisiopatológico, consideramos que podría existir una diseminación microscópica del cistoadenofibroma seroso que podría causar irritación peritoneal. Encontramos una publicación similar con estos niveles de antígeno CA-125 de Mollamahmutog et al.⁸ de un caso pseudo-pseudo-Meigs; la mayoría de los casos ginecológicos publicados se encuentra en cifras menores a 100 U/l, lo cual fortalece nuestra publicación. Asimismo estamos obligados a descartar malignidad, ya que puede existir una combinación de tumoración benigna

y maligna, como describe en un caso Okazaki⁹. Es por ello que se estudió completamente a nuestra paciente agotando todas las posibilidades de diagnóstico, motivo por el cual se realizó un *second look* con toma de biopsia y resección del ovario contralateral a pesar de que este se encontraba sin patología evidente. Todas las pruebas, resultados de patología, cultivos y los estudios fueron negativos a malignidad.

Realizar un diagnóstico de SM considerando la presentación clínica clásica es relativamente sencillo, no así cuando se presenta un caso atípico de SPM, como se observa en este caso. Se debe ofrecer un manejo multidisciplinario, la mayoría de los artículos mencionan mejoría significativa posterior al manejo quirúrgico, sin

embargo, no existe información respecto esta presentación atípica del SM.

Agradecimientos

Al Dr. Rafael Topete-Estrada por su invaluable apoyo en la enseñanza de la cirugía laparoscópica, por el seguimiento estricto en este caso para poder establecer un diagnóstico y tratamiento oportuno. Al Dr. Jorge Román Audifred-Salomón y al equipo de laparoscopia del hospital.

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. Losa EM, Villar M, Pascual A, Gómez T, González G, Merlo D. Síndrome de Meigs y pseudo-Meigs. 2006;33(1):25-34.
2. Rousset P, Chaillot P, Bats A. Case report. YMOB. 2011;205(4):e4-e5.
3. Shun W, Wong F. Gynecology and minimally invasive therapy. A case of pseudo-Meigs syndrome mismanaged as peritoneal carcinomatosis. Gynecol Minim Invasive Ther. 2015;3(4):131-3.
4. Ahmed O, Malley T. A case of pseudo-pseudo Meigs' syndrome. Oxf Med Case Reports. 2019;2019(2):omy136.
5. Riley L, Karki A, Mehta HJ, Ataya A. Disease-a-month obstetric and gynecologic causes of pleural effusions. Dis Mon. 2019;65(4):109-14.
6. Ragnar A, Jiménez T, Solís-Vallejo E, et al. Síndrome de Tjälma (pseudo-pseudo Meigs) como manifestación inicial de lupus eritematoso sistémico de inicio juvenil. Reumatol Clin. 2019;15(5):e41-e43.
7. Sánchez-Torres DA, Díaz-Murillo R, Kazlauskas S, de Santiago J, Zapardiel I. Síndrome de Meigs por fibroma ovárico bilateral parecido al cáncer de ovario. Ginecol Obstet Mex. 2016;84(2):122-5.
8. Ural UM, Kiliç A, Güngör T, Mollamahmutog L. Tjälma's or pseudo-pseudo-Meigs' syndrome: a case report. 2008;33:363-4.
9. Okazaki A, Nishi K, Kasahara K. Pseudo-Meigs syndrome caused by cancer of the uterine corpus. Am J Obstet Gynecol. 2019;221(1):71-2.