

CASO CLÍNICO

1. Doctor en Medicina Clínica, Especialista en Ginecología y Obstetricia, Servicio de Obstetricia y Ginecología, Hospital Central "Dr. Urquinaona", Maracaibo, Venezuela. ORCID 0000-0002-5433-7149

Declaración de aspectos éticos

Reconocimiento de autoría: El autor declara que ha realizado aportes a la idea, diseño del estudio, recolección de datos, análisis e interpretación de datos, revisión crítica del contenido intelectual y aprobación final del manuscrito que estamos enviando.

Responsabilidades éticas: Protección de personas. El autor declara que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

Confidencialidad de los datos: El autor declara que ha seguido los protocolos del Hospital Central de Maracaibo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado: El autor ha obtenido el consentimiento informado de la paciente y/o sujeto referido en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Financiamiento: El autor certifica que no ha recibido apoyos financieros, equipos, en personal de trabajo o en especie de personas, instituciones públicas y/o privadas para la realización del estudio.

Recibido: 29 agosto 2022

Aceptado: 26 noviembre 2022

Publicación en línea: 27 de marzo 2023

Correspondencia:

Dr. Eduardo Reyna-Villasmil

📍 Hospital Central "Dr. Urquinaona", Final Av. El Milagro, Maracaibo, Venezuela

☎ 58162605233

✉ sippenbauch@gmail.com

Citar como: Reyna-Villasmil E. Ooforosalingitis xantogranulomatosa. Comunicación de caso. Rev peru ginecol obstet. 2023;69(1). DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v69i2489>

Ooforosalingitis xantogranulomatosa. Comunicación de caso Xanthogranulomatous oophorosalingitis. Case report

Eduardo Reyna-Villasmil¹

DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v69i2489>

RESUMEN

La inflamación xantogranulomatosa del tracto genital femenino es infrecuente y es aún más rara en las trompas de Falopio y ovarios. Se presenta un caso de ooforosalingitis xantogranulomatosa en una paciente femenina de 45 años quien asistió a consulta por presentar dolor en fosa iliaca izquierda acompañado de fiebre. La exploración bimanual mostró útero ligeramente aumentado de tamaño con masa anexial izquierda firme, no dolorosa, adherida al útero y con limitada movilidad. La evaluación ecográfica transvaginal determinó tumoración ovárica izquierda, heterogénea con paredes gruesas e irregulares con múltiples septos y ecos internos sin visualizar el ovario. Durante la cirugía, se encontraron adherencias densas desde la masa hacia la pared lateral pélvica, fosa ovárica y asas intestinales. El útero estaba desplazado por tumoración anexial quística izquierda, de color blanco grisáceo y paredes gruesas que drenaba líquido purulento fétido. El diagnóstico definitivo fue ooforosalingitis xantogranulomatosa. Esta condición es un proceso inflamatorio poco frecuente que plantea dilemas diagnósticos. Sus manifestaciones clínicas y características de estudios por imágenes pueden simular una neoplasia pélvica maligna, por lo que es necesario un alto índice de sospecha para su diagnóstico, como diagnóstico diferencial en pacientes con tumoraciones ováricas quísticas complejas. El examen histopatológico es el estándar de oro para el diagnóstico.

Palabras clave: Inflamación xantogranulomatosa, Ovario, Trompas de Falopio

ABSTRACT

Xanthogranulomatous inflammation of the female genital tract is infrequent and is even rarer in fallopian tubes and ovaries. We present a case of xanthogranulomatous oophorosalingitis in a 45-year-old female patient who consulted for left iliac fossa pain accompanied by fever. Bimanual examination revealed a slightly enlarged uterus with a firm, non-painful left adnexal mass, adherent to the uterus and with limited mobility. Transvaginal ultrasound evaluation showed a heterogeneous left ovarian tumor with thick and irregular walls, multiple septa and internal echoes without visualization of the ovary. During surgery, dense adhesions were found from the mass to the pelvic lateral wall, ovarian fossa, and bowel loops. The uterus was displaced by a thick-walled, grayish-white, cystic left adnexal tumor draining foul-smelling purulent fluid. The definitive diagnosis was xanthogranulomatous oophorosalingitis. This condition is a rare inflammatory process that poses diagnostic dilemmas. Its clinical manifestations and imaging features may mimic a malignant pelvic neoplasm, so a high index of suspicion is necessary for its diagnosis, as a differential diagnosis in patients with complex cystic ovarian tumors. Histopathological examination is the gold standard for diagnosis.

Key words: Xanthogranulomatous inflammation, Ovary, Fallopian tubes

INTRODUCCIÓN

La inflamación xantogranulomatosa es una condición crónica rara, en la que los tejidos afectados son destruidos y sustituidos por infiltrados celulares inflamatorios que contienen histiocitos espumosos, células gigantes multinucleadas, células plasmáticas y neutrófilos⁽¹⁾. El riñón es el órgano más comúnmente afectado, pero también lo pueden ser la vesícula biliar, estómago, zona anorrectal, huesos, vejiga urinaria, testículos y epidídimo⁽²⁾. Cuando aparece en el tracto genital femenino, el sitio más comúnmente aquejado es el endometrio, seguido por vagina, cuello uterino, trompas de Falopio y ovarios. Los casos generalmente aparecen como enfermedad inflamatoria pélvica que no responde a los antibióticos⁽³⁾. El tratamiento es quirúrgico debido a que las manifestaciones clínicas y características radiológicas son similares a las neoplasias ováricas malignas⁽⁴⁾. Se presenta un caso de ooforosalingitis xantogranulomatosa.

COMUNICACIÓN DEL CASO

Una paciente femenina de 45 años, nuligesta, asistió a la consulta por presentar dolor en fosa iliaca izquierda, intermitente, de leve a moderada intensidad, sin irradiación, de 25 días de evolución que mejoraba con analgésicos y que estaba acompañado de fiebre. La paciente refirió menarquía a los 14 años con ciclos menstruales normales y negó antecedentes médicos o quirúrgicos de importancia.

El examen físico evidenció ligera palidez cutáneo-mucosa. Los parámetros hemodinámicos eran: frecuencia cardíaca 95 latidos por minuto, presión arterial 140/85 mmHg y frecuencia de 16 respiraciones por minutos. El abdomen estaba blando, depresible y doloroso a la palpación profunda en fosa iliaca izquierda, sin signos de defensa, ascitis o hepatoesplenomegalia. La exploración bimanual mostró el útero ligeramente aumentado de tamaño con masa anexial izquierda de aproximadamente 5 centímetros de diámetro, firme, no dolorosa, adherida al útero y con limitada movilidad. El tacto rectal no presentaba anomalías.

La evaluación ecográfica transvaginal mostró tumoración ovárica izquierda, heterogénea, de aproximadamente 6 centímetros de diámetro, de paredes gruesas e irregulares con septos y ecos internos; no se visualizó el ovario. El Doppler reveló vascularización tanto dentro como en la periferia del tumor (figura 1). El útero estaba ligeramente aumentado de tamaño y el ovario derecho presentaba quiste unilocular. Las imágenes de tomografía computada mostraron al útero ligeramente aumentado de tamaño con lesión compleja multilocular, heterogénea, sólido-quística con matriz de intensidad mixta sospechosa de malignidad en el anexo izquierdo (figura 2). No había evidencia de hidroureter o hidronefrosis.

Los resultados de las pruebas sanguíneas presentaron aumento del conteo de leucocitos (12,000/L) y de la velocidad de sedimentación globular (45 milímetros en la primera hora). El resto de las pruebas de hematología, funcionalismo hepático y renal, amilasa, lipasa, perfil de coagulación electrolitos y examen de orina estaban dentro de límites normales. La concentración del marcador tumoral CA-125 era de 57 UI/L (valor normal menor de 35 UI/L). En vista de

FIGURA 1. ECOGRAFÍA TRANSVAGINAL. A) TUMORACIÓN HETEROGÉNEA DE OVARIO IZQUIERDO CON PAREDES GRUESAS E IRREGULARES Y SEPTOS INTERNOS. B) ECOGRAFÍA DOPPLER QUE MUESTRA VASCULARIZACIÓN DENTRO Y ALREDEDOR DEL TUMOR.

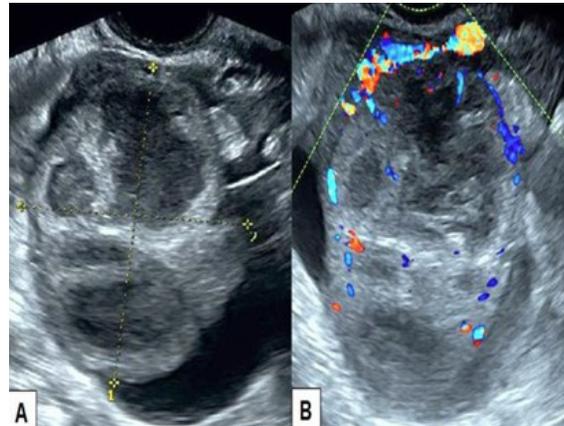


FIGURA 2. TOMOGRAFÍA COMPUTADA. A) IMAGEN AXIAL Y B) SAGITAL. LA FLECHA SEÑALA LA TUMORACIÓN MULTILOCULAR, HETEROGÉNEA, SÓLIDO-QUÍSTICA CON MATRIZ DE INTENSIDAD MIXTA.



los hallazgos se decidió programar a la paciente para cirugía.

Durante la intervención se encontraron adherencias densas desde la masa hacia la pared lateral pélvica, fosa ovárica y asas intestinales. El útero estaba desplazado por tumoración anexial quística izquierda, de color blanco grisáceo y paredes gruesas, que drenaba líquido purulento fétido. El ovario derecho estaba ligeramente aumentado de tamaño e incluido dentro de las adherencias. El apéndice cecal aparecía normal y los ganglios linfáticos no eran palpables. En vista de las condiciones quirúrgicas y el deseo de la paciente, se realizó histerectomía total con ooforosalingectomía bilateral y lisis de adherencias. La cirugía culminó sin complicaciones. La paciente fue dada de alta el cuarto día del postoperatorio en condiciones satisfactorias.



Al estudio anatomopatológico, la tumoración medía 6 x 5 centímetros y era de color blanco-amarillenta con porciones sólido-quísticas, hemorragia focal y pseudocápsula de grosor variable. La evaluación microscópica mostró inflamación crónica con agregados y láminas de macrófagos espumosos con abundante citoplasma, pequeñas vacuolas lipídicas y núcleos hipocromáticos, mezclados con linfocitos, células plasmáticas y células gigantes multinucleadas. Además, fibrosis densa e infiltrado celular inflamatorio, junto con vasos sanguíneos congestionados, sin revestimiento epitelial definido y tejido ovárico normal en la periferia. La pared de la trompa de Falopio contenía macrófagos espumosos mezclados con algunos linfocitos y neutrófilos. No se identificaron células tumorales / granulomatosas de células epitelioides. La inmunohistoquímica tuvo tinción positiva para CD68 mientras que CKAE1/AE3 fue negativa (figura 3). Las tinciones de ácido-schiff periódico y ácido-resistente fueron negativas. El útero medía 10 centímetros de longitud x 5 centímetros de ancho, con superficie lisa y sin evidencia de lesiones. El anexo derecho estaba dentro de límites normales. El diagnóstico definitivo fue ooforosalpingitis xantogranulomatosa.

DISCUSIÓN

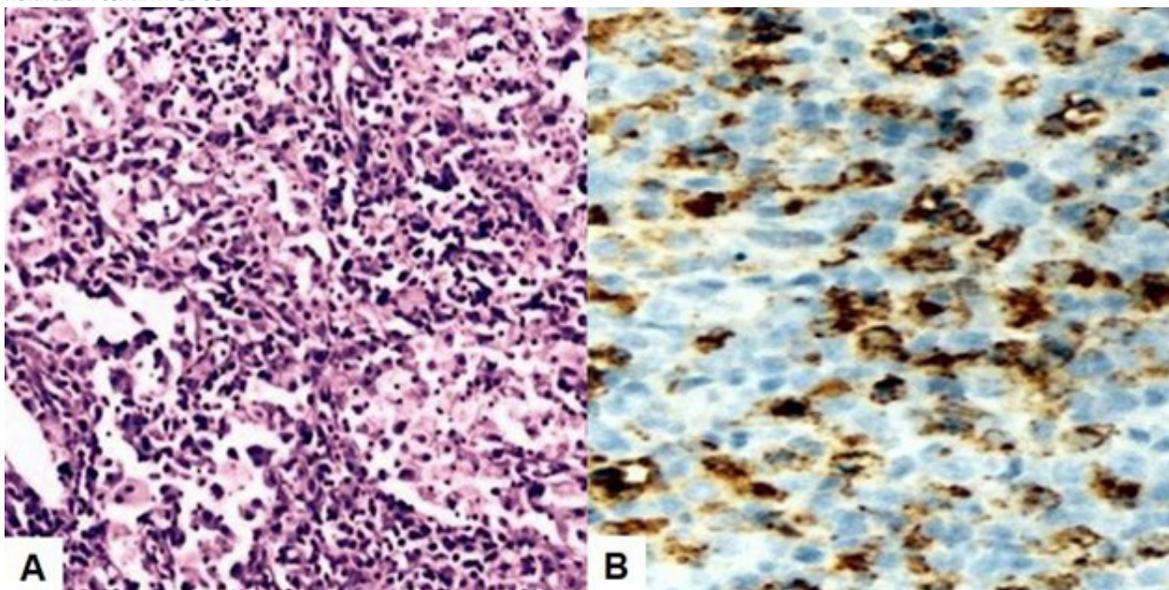
La inflamación xantogranulomatosa del tracto genital femenino (también conocida como sal-

pingitis xantogranulomatosa y fibroxantoma ovárico) es una forma rara de inflamación que puede afectar tanto a las trompas de Falopio como a los ovarios, ya sea de forma localizada o en su totalidad. Esto lleva a la aparición de una lesión similar a un tumor pélvico e invasión de los tejidos circundantes⁽²⁾. Existen descripciones de menos de 20 casos de afección xantogranulomatosa tubo-ovárica.

Existen teorías que asocian ciertas condiciones con la inflamación xantogranulomatosa. Entre estas teorías están la inflamación secundaria a enfermedad inflamatoria pélvica, radioterapia, endometriosis pélvica, uso de dispositivo intrauterino, alteraciones del metabolismo lipídico innato de los macrófagos y antibiotioterapia con eliminación inadecuada de microorganismos como *Bacteroides fragilis*, *Proteus vulgaris*, *Escherichia coli*, *Staphylococcus aureus* y *Salmonella typhi*⁽⁵⁻⁸⁾. También existen casos asociados a fallo ovárico prematuro, obstrucción intestinal, diverticulitis y posterior a embolización de la arteria uterina⁽⁹⁾. La respuesta inmunitaria insuficiente combinada con episodios de isquemia, necrosis y hemorragia podría llevar a acumulación de linfocitos, células plasmáticas y neutrófilos⁽¹⁰⁾.

La ooforosalpingitis xantogranulomatosa ocurre generalmente en mujeres en edad reproductiva y antecedentes de enfermedad inflamatoria pélvica con sintomatología de dolor abdominal

FIGURA 3. IMAGEN MICROSCÓPICA DE OOFOROSALPINGITIS XANTOGRANULOMATOSA. A) TEJIDO OVÁRICO EN LA QUE SE OBSERVA AGREGADOS DE MACRÓFAGOS ESPUMOSOS MEZCLADOS CON LINFOCITOS, CÉLULAS PLASMÁTICAS Y CÉLULAS GIGANTES MULTINUCLEADAS (COLORACIÓN HEMATOXILINA-EOSINA, 40X). B) INMUNOTINCIÓN POSITIVA A CD68.





crónico, masa palpable, anorexia, infertilidad, dispareunia, fiebre e irregularidades menstruales⁽¹¹⁾. El órgano afectado sufre desorganización y su tejido es reemplazado por tumor mixto, blanco-amarillento, lobulado, bien circunscrito, que en ocasiones puede invadir órganos adyacentes, imitando una neoplasia pélvica maligna⁽¹²⁾.

No existen pruebas bioquímicas o de imágenes preoperatorias suficientemente precisas en los casos de ooforitis xantogranulomatosa. Los hallazgos de estudios por imágenes pueden simular una neoplasia ovárica maligna, debido a la presencia de tumoración anexial sólida, afectación tanto de los órganos adyacentes como del peritoneo pélvico. En la ecografía, el tumor puede medir entre 3 y 7 centímetros y la inflamación puede extenderse a los órganos vecinos. Además, las estructuras pélvicas y el peritoneo pueden presentar adherencias y distorsión de la anatomía, lo que aumenta aún más la sospecha de malignidad⁽¹³⁾. Los hallazgos en la resonancia magnética no están muy bien descritos en la literatura publicada. Las imágenes pueden mostrar múltiples nódulos intramurales con paredes engrosadas o lesiones quísticas septadas bien definidas que aparecen hiperintensas en las imágenes ponderadas en T1 y T2. Aunque este puede ser un hallazgo específico, no siempre es identificable. Por lo tanto, el diagnóstico final está basado en los hallazgos histológicos postoperatorios⁽¹⁴⁾.

Desde el punto de vista anatomopatológico, la estructura tubo-ovárica normal está destruida y es sustituida por infiltración de células espumosas mezcladas con linfocitos, células plasmáticas, neutrófilos, con o sin células gigantes multinucleadas (células gigantes de Touton)⁽¹⁴⁾. Los histiocitos espumosos (células de xantoma) tienen abundante citoplasma cargado de lípidos y aspecto vacuolado, responsables de la coloración en el examen macroscópico^(4,8). Las tinciones inmunohistoquímicas pueden ser útiles para establecer el diagnóstico son CD68 (células espumosas positivas), CD3 (linfocitos T), CD20 (linfocitos B) y kappa - lambda (ambos positivos en linfocitos B policlonales)⁽⁵⁾.

Esta condición puede ser difícil de diferenciar de otras condiciones, probablemente debido a su baja incidencia. Si el tumor tiene linfocitos focales dispersos, puede confundirse con linfo-

ma o leucemia secundaria. Si los linfocitos están difusos con escasas células espumosas, puede imitar al carcinoma maligno de células pequeñas. Otros diagnósticos diferenciales de ooforosalingitis xantogranulomatosa incluyen la tuberculosis e infecciones fúngicas, que pueden ser descartadas mediante cultivos y tinciones especiales para cada organismo. La malacoplaxia, que suele aparecer en el sistema urinario, es uno de los diagnósticos diferenciales de la inflamación xantogranulomatosa. Estas tienen cuerpos calcificados concéntricos citoplásmicos (cuerpos de Michaelis-Gutmann), que están ausentes en la inflamación xantogranulomatosa. Las tinciones inmunohistoquímicas ayudan a confirmar el diagnóstico⁽⁴⁾.

La ooforosalingitis xantogranulomatosa puede ser letal al causar inflamación sistémica. Por lo tanto, el único tratamiento es la ooforectomía^(10,15). La biopsia por congelación puede ser útil en el diagnóstico y manejo transoperatorio, evitando cirugías innecesarias y extensas. Además, puede ayudar a descartar neoplasias malignas que pueden coexistir con la inflamación xantogranulomatosa^(1,10).

En conclusión, la ooforosalingitis xantogranulomatosa es un proceso inflamatorio poco frecuente que plantea dilemas diagnósticos. Sus manifestaciones clínicas y características de estudios por imágenes pueden simular una neoplasia pélvica maligna, por lo que es necesario un alto índice de sospecha para su diagnóstico y hacer el diagnóstico diferencial en pacientes con tumoraciones ováricas quísticas complejas. El examen histopatológico es el estándar de oro para el diagnóstico. Se puede evitar la cirugía innecesaria y extensa utilizando los resultados de la biopsia por congelación.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Bhatnagar K, Narang V, Garg B, Sood N. Xanthogranulomatous oophoritis: A rare case report. *Iran J Pathol.* 2018;13(3):372-6.
2. Jayashree N, Shobha K, Bafna UD. Xanthogranulomatous oophoritis: a diagnostic dilemma. *J Obstet Gynaecol India.* 2019;69(Suppl 1):44-7. doi: 10.1007/s13224-017-0967-6
3. Khan B, Aziz AB, Ahmed R. Case of xanthogranulomatous oophoritis. *J Ayub Med Coll Abbottabad.* 2017;29(1):162-4.
4. Rawal G, Zaheer S, Dhawan I. Xanthogranulomatous oophoritis mimicking an ovarian neoplasm: A rare case report. *J Midlife Health.* 2018;9(1):41-3. doi: 10.4103/jmh.JMH_111_17



5. Merviel P, James P, Carlier M, Thomas-Kergastel I, Guilloique M, Conan-Charlet V, et al. Xanthogranulomatous endometritis: A case report and literature review. *Clin Case Rep.* 2021;9(6):e04299. doi: 10.1002/ccr3.4299
6. Rathore R, Chauhan S, Mendiratta S, Sharma R, Nain M, Sarin N. Xanthogranulomatous salpingo oophoritis, lessons learnt: Report of two cases with unusual presentation. *J Family Reprod Health.* 2017;11(3):174-8.
7. Tanwar H, Joshi A, Wagaskar V, Kini S, Bachhav M. Xanthogranulomatous salpingoophoritis: The youngest documented case report. *Case Rep Obstet Gynecol.* 2015;2015:237250. doi: 10.1155/2015/237250
8. Son J, Raetskaya-Solntseva O, Tirman PA, Waters GS, Kelly MG. Xanthogranulomatous oophoritis presenting as an adnexal mass and bowel obstruction. A case report. *J Reprod Med.* 2015;60(5-6):273-6.
9. Abesundara PK, Padumadasa GS, Tissera WG, Wijesinghe PS. Xanthogranulomatous salpingitis and oophoritis associated with endometriosis and uterine leiomyoma presenting as intestinal obstruction. *J Obstet Gynaecol Res.* 2012;38(8):1115-7. doi: 10.1111/j.1447-0756.2011.01834.x
10. Elahi AA, Nigam A, Pujani M, Batra S. Xanthogranulomatous oophoritis mimicking malignancy: a diagnostic dilemma. *BMJ Case Rep.* 2015;2015:bcr2015210642. doi: 10.1136/bcr-2015-210642
11. Murhekar K, Majhi U, Senthilkumar AC, Sundersingh S, Sridevi V. A rare case of xanthogranulomatous oophoritis. *J Cancer Res Ther.* 2014;10(1):209-10. doi: 10.4103/0973-1482.131426
12. Shukla S, Pujani M, Singh SK, Pujani M. Xanthogranulomatous oophoritis associated with primary infertility and endometriosis. *Indian J Pathol Microbiol.* 2010;53(1):197-8. doi: 10.4103/0377-4929.59240
13. Raj JA, Jagadeesha M, Naveen S, Ramachandra U. Xanthogranulomatous oophoritis: pathologic findings with clinical correlation. *J Indian Med Assoc.* 2012;110(9):653-4.
14. Maruyama M, Yoshizako T, Yoshida R, Ishikawa N, Kyo S, Kitagaki H. MR imaging of xanthogranulomatous oophoritis. *Magn Reson Med Sci.* 2018;17(3):191-2. doi: 10.2463/mrms.ci.2017-0067
15. Gami N, Mundhra R, Guleria K, Arora VK, Garg S. Recurrent pyometra and xanthogranulomatous salpingitis: A rare pathologic association in a postmenopausal lady. *J Midlife Health.* 2014;5(3):156-8. doi: 10.4103/0976-7800.141227