

## Casos Clínicos

### Endosalpingiosis como causa de dolor pélvico crónico: Reporte de un caso.

Malka Irina Wadnipar Gutierrez<sup>1</sup>, Janer Sepúlveda Agudelo<sup>2</sup>, Silvia Nathalia Vera Campos<sup>3</sup>, Fabio Andrés Monares Vera<sup>4</sup>.

<sup>1</sup> Residente tercer año ginecología y obstetricia. Universidad Industrial de Santander. Bucaramanga, Colombia

<sup>2</sup> Médico Gineco-obstetra, especialista en cirugía endoscópica ginecológica. Departamento de Ginecología y Obstetricia, Universidad Industrial de Santander. Bucaramanga, Colombia.

<sup>3</sup> Estudiante de medicina. Universidad Industrial de Santander. Bucaramanga, Colombia

<sup>4</sup> Médico y cirujano. Universidad Industrial de Santander. Bucaramanga, Colombia

#### RESUMEN

La endosalpingiosis es una patología benigna de origen embriológico caracterizada por la presencia de epitelio tubárico en una localización ectópica; la cual debe ser considerada ante la presencia de dolor pélvico crónico. Su etiología no está clara, y su diagnóstico suele ser un hallazgo incidental durante estudios imagenológicos, laparotomía o laparoscopia, y solo es confirmado por el estudio histopatológico.

Se presenta el caso de una paciente de 43 años con antecedente de esterilización quirúrgica y resección de pólipo endocervical, quien consulta por dolor pélvico crónico de 6 años de evolución, localizado en fosa iliaca derecha. Se realiza laparoscopia exploratoria con hallazgos quirúrgicos sugestivos de endosalpingiosis.

**PALABRAS CLAVE:** Endosalpingiosis, dolor pélvico, endometriosis.

#### ABSTRACT

Endosalpingiosis is a benign pathology of embryological origin characterized by the presence of tubal epithelium in an ectopic location; it must be considered in the presence of chronic pelvic pain. Its etiology is not clear, and its diagnosis is usually an incidental finding during imaging studies or during laparotomy or laparoscopy, and is only confirmed by the histopathological studies.

We present the case of a 43-year-old patient with a history of surgical sterilization and endocervical polyp resection, who consulted for chronic pelvic pain of 6 years of evolution, located in the right iliac fossa. Exploratory laparoscopy was performed with surgical findings suggestive of endosalpingiosis

**KEYWORDS:** Endosalpingiosis, pelvic pain, endometriosis.

## INTRODUCCIÓN

La endosalpingiosis es un desorden ginecológico no neoplásico, el cual consiste en la presencia de epitelio tubárico ciliado glandular en una localización ectópica<sup>1</sup>. Fue descrita por primera vez en 1930 por Sampson<sup>2</sup> para definir un crecimiento epitelial inusual e invasivo en pacientes con salpingectomía previa y posteriormente descrita por otros autores en relación con procedimientos de esterilización quirúrgica<sup>3</sup>.

Se presenta con mayor frecuencia entre la tercera y cuarta década de vida, e incluso se han reportado casos en mujeres posmenopáusicas<sup>4</sup>. Se describe una incidencia del 7% en pacientes sometidas a una laparoscopia por sintomatología ginecológica como dolor abdominal, infertilidad o sospecha de malignidad<sup>3,5</sup>.

Su localización más común es a nivel peritoneal, superficie ovárica, uterina o tubarica, y en menor frecuencia en ganglios linfáticos, vejiga, colon, apéndice cecal, piel o bazo<sup>1, 6</sup>. Su clínica suele ser asintomática, sin embargo, se puede relacionar con síntomas inespecíficos que dependen de su localización, como dolor pélvico crónico, dismenorrea, infertilidad, síntomas urológicos y digestivos<sup>3</sup>.

## REPORTE DE CASO

Paciente de 43 años G3P3A0 con dolor pélvico crónico de 6 años de evolución, localizado en fosa iliaca derecha tipo cólico, irradiado a muslo. Con antecedente de esterilización quirúrgica y resección de pólipo endocervical. Laboratorios de control muestra frotis de flujo vaginal normal, hemograma con hemoglobina de 14.2 gr/dl, Hematocrito 43%, leucocitos 10.400 células/mm<sup>3</sup>, plaquetas 446.500 células/mm<sup>3</sup>. Ecografía abdominal y pélvica sin alteraciones.

Se realiza laparoscopia exploratoria con hallazgos quirúrgicos de lesiones blanquecinas sobre ambas trompas y superficie de la serosa uterina, sugestivas de endosalpingiosis; se toma biopsia, se envía a patología, con reporte de pared de trompa uterina con focos de restos embrionarios, salpingitis crónica y endosalpingiosis (Figura 1). En el control posquirúrgico refiere mejoría desde el primer mes, progresando a mejoría considerable a los once meses.

La paciente firmó consentimiento informado, autorizando la divulgación científica del caso. Se garantizó confidencialidad, protegiendo su identidad y preservando sus derechos.

## DISCUSIÓN

La endosalpingiosis es una patología benigna de origen embriológico que se debe considerar ante la presencia de una masa pélvica, debido a que su presentación puede imitar una patología maligna. Su etiología no está clara y su diagnóstico suele ser un hallazgo incidental durante estudios imagenológicos, laparotomía o laparoscopia, este diagnóstico solo es confirmado por el estudio histopatológico. En nuestro caso se decidió realizar laparoscopia exploratoria dado que el único síntoma que presentaba la paciente era dolor pélvico crónico, esta sintomatología es muy inespecífica, requiriéndose ayudas diagnósticas como esta; sin embargo, el diagnóstico confirmatorio se realizó mediante el estudio microscópico de la muestra.

Por otro lado los factores de transcripción PAX2 y PAX8 tienen expresión limitada a los conductos de Wolff y Müller durante la organogénesis, estas estructuras primordiales dan origen a órganos urogenitales, incluyendo riñón, uréter, vesículas seminales, útero y trompas de Falopio. Estos factores son importantes no solo para la embriogénesis sino también para la homeostasis del tejido maduro. Se ha observado que las lesiones benignas del sistema mulleriano como el pólipo endometrial, quistes de inclusión epitelial ovárica, endometriosis, adenomiosis y endosalpingiosis expresan PAX2 y PAX8 en el estudio inmunohistoquímico<sup>7</sup>. Entre los antecedentes de importancia de la paciente se encuentra un procedimiento quirúrgico para la resección de pólipo endocervical, el cual muestra relación entre las lesiones del sistema mulleriano.

Durante la organogénesis, se activan una serie de genes de la familia WNT como el WNT4, que producen las señales necesarias para conducir el desarrollo de las estructuras mullerianas; esa es la razón por la cual las mutaciones en el gen WNT4 causan regresión del conducto de müller. Algunos autores plantean la posibilidad que esta alteración puede ser causada por la reactivación anormal de estos genes, causando metaplasia de los tejidos normales<sup>8</sup>.

Su etiología aun es desconocida, sin embargo, se han planteado 5 teorías<sup>9</sup> entre las que se encuentran la iatrogenia, por implantación y la metaplásica. La primera se considera el resultado de una diseminación intraoperatoria de tejido de origen mulleriano durante procedimientos quirúrgicos en el área pélvica. Sin embargo, la coexistencia de varios tipos de tejidos mullerianos de distinto origen anatómico, apoyan la

teoría de transformación metaplásica del epitelio celómico en epitelio de tipo tubárico, generada por estímulos hormonales<sup>3</sup>, esta última es la más aceptada.

Entre las otras teorías está la extensión directa, en la que el epitelio tubárico se extiende a peritoneo por adherencia, esta reactividad, basada en una salpingitis con proliferación excesiva de trompas durante el proceso de reparación y la metástasis linfovascular, esto ocasionaría la aparición de la enfermedad<sup>9</sup>. En el hallazgo histopatológico además de la endosalpingiosis también se encontró una salpingitis crónica moderada, la cual puede apoyar la teoría de reactividad en este caso.

Según un estudio retrospectivo de Heinig y colaboradores<sup>10</sup>, diagnosticaron endosalpingiosis en 13 pacientes en un período de 6 años. De éstos, nueve pacientes tenían antecedentes de cirugías, 2 (15%) pacientes tenían cirugía de trompas, 2 (15%) tenían cesárea y 5 (38%) tenían más de dos cirugías abdominales. Por lo tanto, no debe excluirse el antecedente quirúrgico de la paciente como posible etiología.

Por otra parte, la endosalpingiosis, endometriosis y endocervicosis constituyen la triada de desórdenes no neoplásicos del sistema mülleriano; un 34% de los casos notificados se han asociado con endometriosis<sup>1</sup>. Para hablar de müllerianosis se requiere que la lesión se encuentre compuesta de al menos dos tipos de tejido ectópico con este origen<sup>11</sup>, por lo cual también se especula que derivan del sistema mülleriano secundario<sup>12</sup>. En nuestro caso no se encontraron hallazgos de müllerianosis.

Asimismo, el peritoneo es el lugar de manifestación de una serie de enfermedades primarias y secundarias con una amplia gama de proliferaciones microscópicas visibles. Las proliferaciones peritoneales se pueden diagnosticar por medio de endoscopia<sup>12</sup>. En términos macroscópicos es casi imposible distinguir entre distintos tipos de proliferación peritoneal<sup>13</sup>.

Macroscópicamente está compuesta de quistes o de una arquitectura papilar compleja<sup>11</sup>. En la descripción microscópica se caracteriza por la presencia de epitelio tubárico que contiene tres tipos de células: células cilíndricas ciliadas, mucosas secretoras e intercalares, en una localización ectópica, con un estroma ausente no hemorrágico, lo que permite diferenciarla de la endometriosis<sup>14</sup>.

Entre los diagnósticos diferenciales también se incluye el mesotelioma quístico benigno, que incluye múltiples quistes de inclusiones peritoneales. Este

último se distingue por la presencia uniforme de células mesoteliales atenuadas que recubren los espacios de la región quística<sup>13,15</sup>.

Aunque la endosalpingiosis es considerada una patología benigna no neoplásica, existen casos de transformación maligna a adenocarcinoma papilar seroso<sup>6</sup>. Es importante diferenciarlo de este debido a la presencia de papilas y de aspecto en racimo de uva como excrescencias en el peritoneo pélvico, el ovario y el útero, ya que el manejo de esta afección es principalmente conservador<sup>13</sup>. A sí mismo, un estudio realizado por Esselen y colaboradores<sup>5</sup>, en pacientes que habían sido sometidas a cirugías ginecológicas, compararon la frecuencia de endometriosis y neoplasias ginecológicas con y sin endosalpingiosis; se observó endometriosis, cáncer uterino y cáncer de ovario, con mayor frecuencia en las mujeres con endosalpingiosis; esto plantea la posibilidad de que esta entidad sea considerada como un precursor de lesiones malignas ginecológicas y de aquí la importancia del seguimiento a corto y largo plazo de la paciente, tal como se realizó en este caso.

Respecto a las manifestaciones clínicas en 2012, Prentice y colaboradores<sup>12</sup>, presentaron el primer estudio que caracterizaba la demografía y la presentación clínica de endosalpingiosis, comparándolo con los datos de las mujeres con endometriosis concluyendo que el 34,5% de los casos de endosalpingiosis presentaban endometriosis concurrente; y como hallazgo relevante el 40% del grupo con endosalpingiosis fueron postmenopáusicas.

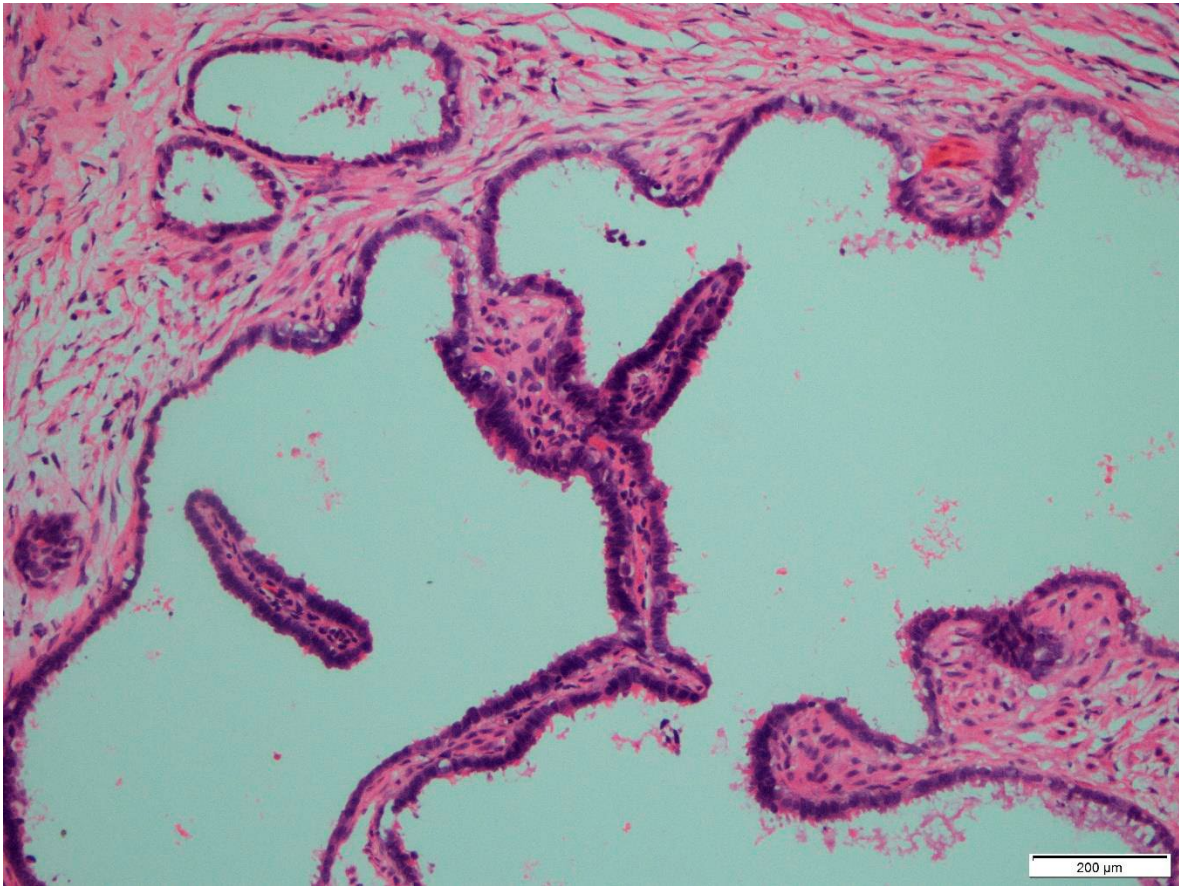
Adicionalmente, Keltz y colaboradores<sup>15</sup>, estudiaron a 51 pacientes sometidos a cirugía laparoscópica de dolor pélvico crónico, encontraron seis casos de endosalpingiosis; cuatro tenían un diagnóstico concurrente de endometriosis. Ong y colaboradores<sup>9</sup>, demostraron que el 55% de los casos de endosalpingiosis encontrados durante la cirugía laparoscópica presentaban dolor pélvico crónico. Por otro lado, Heinig y colaboradores<sup>10</sup>, concluyeron que la endosalpingiosis fue un hallazgo incidental y no una causa frecuente de dolor pélvico. En nuestro caso no se encontró hallazgos de endometriosis y se atribuyó el dolor pélvico a la endosalpingiosis.

Por último, respecto al tratamiento hay pocos datos para establecer una guía, se considera un manejo conservador y en ocasiones se recomienda la resección quirúrgica para evitar complicaciones<sup>15</sup>; una completa resección quirúrgica por lo general no es necesaria; solamente los focos de magnitud atípica que se presentan con frecuencia con alteraciones

quísticas deben ser extirpados completamente con posteriores controles laparoscópicos.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Singhanian N, Janakiraman N, Coslett D, Ahmad N. Endosalpingiosis in Conjunction with Ovarian Serous Cystadenoma Mimicking Metastatic Ovarian Malignancy. *Am J Case Rep.* 2014; 15: 361-363
2. Sampson JA. Postsalpingectomy endometriosis (endosalpingiosis). *Am J Obstet Gynecol* 1930;16:443–80.
3. Fernández P, Argüelles J, Claros I, Pardal B, López P, Pérez S; et al. Dispositivos intratubáricos Essure asociados a dolor pélvico crónico y endosalpingiosis. *Prog Obstet Ginecol.* 2017; 60(1):61-64
4. Pérez LE, Hernández M, Hernandez G, Soto A, Barrera M. Endosalpingiosis como una entidad obstructiva simuladora de neoplasia de sigma. *Cir esp.* 2017; 95(3) 172-173
5. Esselen KM, Terry KL, Samuel A, Elias KM, Davis M, Welch WR et al. Endosalpingiosis: More than just an incidental finding at the time of gynecologic surgery?. *Gynecol Oncol* 2016; 142(2): 255-260
6. Hesselting MH, De Wilde RL. Endosalpingiosis in laparoscopy. *J Am Assoc Gynecol Laparosc.* 1995; 2(2):215-9
7. Ozcan A, Liles N, Coffey D, Shen SS, Truong LD. PAX2 and PAX8 expression in primary and metastatic müllerian epithelial tumors: a comprehensive comparison. *Am J SurgPathol.* 2011; 35(12):1837-47
8. Biason-Lauber A, Konrad D, Navratil F, Schoenle EJ. A WNT4 mutation associated with Mullerian-duct regression and virilization in a 46, XX woman. *N Engl J Med.* 2004; 351(8):792–798
9. Ong N, Maher PJ, Pyman JM, Readman E, and Gordon S. Endosalpingiosis, an unrecognized condition: report and literature review. *Gynecol Surg* 2004; 1:11–14
10. Heinig J, Gottschalk I, Cirkel U, Diallo R. Endosalpingiosis—an underestimated cause of chronic pelvic pain or an accidental finding? A retrospective study of 16 cases. *Eur J Obstet Gynaecol Reprod Biol* 2002; 103:75–8.
11. Sánchez-Merino JM, Guillán-Maqueira C, Álvarez A, Méndez-Díaz C, Rodríguez-Losada J, Chantada V. Mullerianosis vesical. *Prog Obstet Ginecol* 2014; 57:25-9
12. Prentice L., Stewart A., Mohiuddin S., Johnson N.P. What is endosalpingiosis?. *Fertility and Sterility.* 2012;98(4): 942-947
13. Singh N, Murali S, Zangmo R. Florid cystic endosalpingiosis, masquerading as malignancy in a young patient: a brief review. *BMJ Case Rep.* 2013- 201645.
14. Rosenberg P, Nappi L, Santoro A, Bufo P, Greco P. Pelvic mass-like florid cystic endosalpingiosis of the uterus: a case report and a review of literature. *Arch Gynecol Obstet.* 2011 Mar; 283(3):519-23.
15. Keltz M, Kliman H, Arici A, Olive D. Endosalpingiosis found at laparoscopy for chronic pelvic pain. *FertilSteril* 1995;64:482–5.



**Figura 1.** (Hematoxilina-Eosina. A.200) Pared de trompa uterina con focos de restos embrionarios constituidos por estructuras glandulares tapizadas por epitelio seroso, las paredes muestran edema y moderado infiltrado inflamatorio mononuclear en la mucosa