

## Endosalpingiosis del apéndice cecal. Reporte de un caso

### *(Endosalpingiosis of the cecal appendix. Case report)*

Eduardo Reyna-Villasmil <sup>1</sup>✉, Duly Torres-Cepeda<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Servicio de Ginecología y Obstetricia. Hospital Central "Dr. Urquinaona". Maracaibo, Estado Zulia. Venezuela.

Recibido: 14 de Enero de 2019.

Aceptado: 02 de Marzo de 2019.

Publicado online: 22 de Junio de 2019.

[CASO CLÍNICO]

PII: S2477-9369(18)07024-C

#### Resumen (español)

La endosalpingiosis es una condición extremadamente rara, en la que el epitelio tipo tubárico está presente fuera de la trompa de Falopio. Por lo general, se encuentra en peritoneo pélvico y abdominal, ocasionalmente, en ganglios linfáticos. Es uno de los elementos de la triada de las lesiones benignas müllerianas junto con endometriosis y endocervicosis. La causa y patogenia exactas no están claras. Existen varias teorías que intentan explicar la etiología de esta enfermedad. Puede observarse en asociación con tumores del ovario, especialmente tumores serosos limitrofes, solo o en conjunto con implantes tumorales. Existen pocos casos reportados de endosalpingiosis apendicular. Esta enfermedad es asintomática y su hallazgo generalmente es incidental. Se presenta un caso de endosalpingiosis del apéndice cecal diagnosticada en una mujer de 19 años con diagnóstico de apendicitis aguda. Se realizó una apendicectomía laparoscópica y el estudio histopatológico de la muestra demostró glándulas tubulares dilatadas que estaban cubiertas por células cuboidales ciliadas y algunas de ellas estaban cubiertas por células columnares, sugestivas de endosalpingiosis. No se observaron tejidos endocervicales ni endometriales.

#### Palabras clave (español)

Endosalpingiosis; Apéndice cecal; Müllerianosis

#### Abstract (english)

Endosalpingiosis is an extremely rare condition, in which the tubal-type epithelium is present outside the fallopian tube. It is usually found in the pelvic and abdominal peritoneum and, occasionally, in lymph nodes. It is one of the elements of the triad of Müllerian benign lesions along with endometriosis and endocervicosis. The exact cause and pathogenesis are unclear. There are several theories that try to explain the etiology of this disease. It can be observed in association with ovarian tumors, especially serous bordering tumors, alone or in conjunction with tumor implants. There are only a few cases of appendicular endosalpingiosis reported. This disease is asymptomatic and its finding is usually incidental. We present a case of endosalpingiosis of the cecal appendix diagnosed in a 19-year-old woman with acute appendicitis. A laparoscopic appendectomy was performed and the histopathological study of the sample showed dilated tubular glands that were covered by ciliated cuboidal cells, and some of them were covered by columnar cells suggestive of

endosalpingiosis. There were not observed endocervical or endometrial tissues

### Keywords (english)

Endosalpingiosis; Cecal Appendix; Müllerianosis

### Introducción

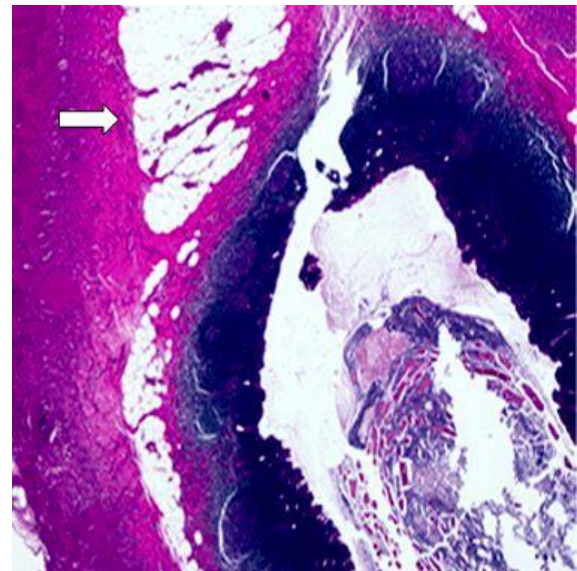
La endosalpingiosis es una entidad benigna que se caracteriza por la presencia de glándulas revestidas con epitelio cilíndrico ciliado rodeadas por estroma fibroso similar al de las trompas de Falopio en órganos pélvicos y abdominales. En la mayoría de los casos es un hallazgo casual diagnosticado por anatomía patológica (1,2). Es una de las tres lesiones müllerianas secundarias no neoplásicas, junto a la endometriosis y la endocervicosis. Se ha descrito su posible asociación con tumores ováricos, alteraciones menstruales, esterilidad y dolor pélvico crónico (3). Cajigas y colaboradores fueron los primeros en hacer mención de su localización apendicular, tras una apendicetomía en una paciente con enfermedad inflamatoria intestinal, como hallazgo casual en el examen microscópico (4). Se presenta un caso de endosalpingiosis del apéndice cecal.

### Caso clínico

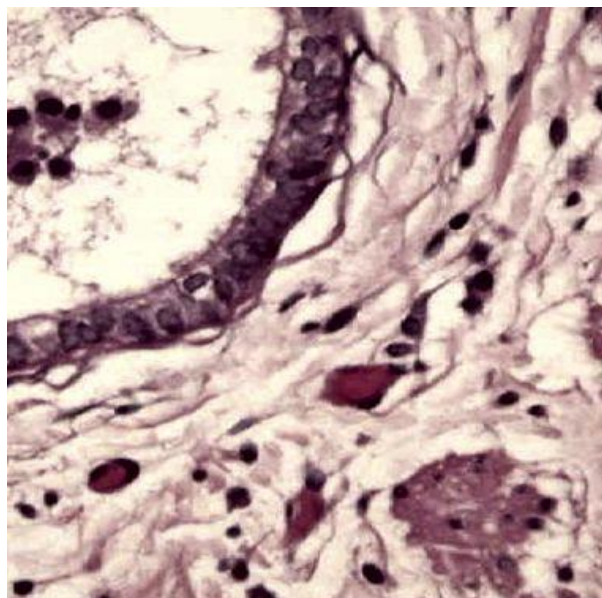
Se trata de una paciente de 19 años, nuligesta, quien acudió a la emergencia por presentar dolor abdominal difuso de inicio súbito y de 5 días de evolución, localizado en fosa iliaca derecha, el cual estaba acompañado de fiebre, náuseas y vómitos. La paciente negaba antecedentes personales, quirúrgicos o familiares de importancia. Refería menarquía a los 14 años.

Al examen físico, estaba en regulares condiciones, afebril pero taquicárdica (100 latidos por minuto) y con presión arterial de 121 /78 mm de Hg. El abdomen presentaba defensa muscular y signos de irritación peritoneal, muy doloroso a la palpación de la fosa iliaca derecha con signo de Blumberg y McBurney positivos. Los exámenes paraclínicos reportaron: leucocitos 12.300 células/mm<sup>3</sup>, 73% de neutrófilos, proteína C reactiva 25 mg/L y fibrinógeno 632 mg/dl. La ecografía abdominal mostró hallazgos compatibles con apendicitis aguda y escasa cantidad de líquido libre en fondo de saco de Douglas, vesico-uterino y fosa iliaca derecha. El útero y ambos anexos estaban normales. Las radiografías simples de tórax y abdomen no mostraron alteraciones.

En vista de estos hallazgos se decidió realizar la cirugía de emergencia, encontrado apéndice inflamado y aumentado de tamaño, flegmonoso con escasa cantidad de líquido seroso libre en cavidad abdominal y sin otros signos de endometriosis, patología pélvica u abdominal. Se realizó apendicetomía laparoscópica según la técnica habitual. La evaluación anatomopatológica reportó: apéndice de 9 centímetros de largo por 3 centímetros de diámetro con signos típicos de inflamación aguda. En la punta del apéndice cecal se encontraron múltiples focos sub-serosos de estructuras glandulares alineadas revestidas de epitelio cúbico ciliado, similar al epitelio tubárico, sin atipias ni anomalías citológicas. No se encontró estroma endometrial ni endocervical (figura 1 y 2). También se encontraron varios cuerpos del psamoma en la grasa peri-apendicular. Las células glandulares eran positivas para citoqueratina-7 y receptores de estrógenos y negativas tanto para



**Figura 1.** Imagen histológica que muestra al apéndice con epitelio glandular revestido por epitelio cilíndrico ciliado de tipo tubárico y ausencia de estroma endometrial compatible con endosalpingiosis del apéndice cecal. La flecha señala la zona donde se encuentra el tejido glandular. Coloración hematoxilina-eosina. 10X



**Figura 2.** Microfotografía de glándulas subserosas en el apéndice cecal con epitelio cuboidal y cilios similar al epitelio de las trompas de Falopio. Coloración de hematoxilina-eosina. 100X.

calretinina como para CD10. Todos estos hallazgos fueron compatibles con endosalpingiosis de apéndice cecal.

El postoperatorio cursó sin eventualidades y la paciente fue dada de alta a los 4 días. Durante el seguimiento la paciente negó reaparición de los síntomas por lo cual no se le indicó tratamiento adyuvante. La ecografía y tomografía pélvica a los 6 meses no demostraron presencia de lesiones pélvicas. Los ovarios estaban normales sin anomalías. Veinte meses después de la cirugía la paciente continuaba asintomática.

### Discusión

La endosalpingiosis fue descrita por primera vez en 1930 y se define como la presencia de glándulas revestidas por epitelio cilíndrico ciliado que se asemeja a la mucosa endosalpingiana, implantado de manera anormal fuera de la trompa de Falopio (4). Existen pocos casos documentados en la literatura, por lo que es difícil determinar su prevalencia real. Su presencia se ha reportado en ovarios, peritoneo, miometrio, vejiga o ganglios linfáticos retroperitoneales (2). Ha

sido descrita la asociación de endosalpingiosis a endometriosis, endocervicosis e incluso a neoplasias serosas ováricas y afecta en su mayoría a mujeres premenopáusicas (3). Finalmente, se ha sugerido una posible relación con la mutación BRCA, aunque no existe evidencia clínica (5).

La causa exacta y patogenia de la endosalpingiosis no está clara. Existen varias teorías que intentan explicar el origen de la enfermedad. La más aceptada para su aparición es que procede de la metaplasia de células celómicas pluripotenciales en el epitelio peritoneal, que se transforman en un epitelio cuboidal ciliado típico de las trompas (2,6). Esta teoría de la müllerianosis explicaría las 4 enfermedades müllerianas (embrionarias) del desarrollo: adenomiosis, endometriosis, endosalpingiosis y endocervicosis. Por otro lado, también se ha propuesto la hipótesis de la implantación iatrogénica metaplásica, consistente en el desplazamiento ectópico de las células tras cirugía de trompas de Falopio u ovarios; pero la evidencia que apoya esta teoría es escasa (5).

En consecuencia, la müllerianosis se definen como un tipo especial de coristoma compuesto por tejidos endometriales, endosalpingeales y endocervicales, ya sea individualmente o en alguna combinación. Cuando solo se identifica un tejido mülleriano, estos coristomas müllerianos pueden diagnosticarse en forma correcta con un alto grado de probabilidad si se cumplen tres criterios: a) ausencia de antecedentes de cirugía en los órganos reproductivos; b) sin evidencia de endometriosis pélvica en el examen visual en la laparoscopia, laparotomía o autopsia; y c) físicamente separado del sistema mülleriano primario (1).

La endometriosis es sintomática en la mayoría de los casos, mientras que la endosalpingiosis suele ser un hallazgo incidental. Ambas condiciones pueden causar un espectro variable de síntomas dependiendo de los sitios involucrados. La intensidad de los síntomas no está directamente relacionada con la extensión de la enfermedad (6, 7). Los síntomas más comunes de ambas condiciones incluyen: dismenorrea adquirida, abdomen inferior, dolor pélvico y lumbar, dispareunia, sangrado irregular e infertilidad. Las lesiones pueden diagnosticarse cuando se observan múltiples y finas calcificaciones pélvicas en las imágenes radiológicas, o cuerpos del psamoma en líquido extraído de fondo de saco posterior en muestras de citología (8). No obstante, el diagnóstico preoperatorio es muy difícil, por lo que su diagnóstico final se debe realizar en base a los hallazgos de anatomía patológica (2,3).

Los diagnósticos diferenciales de endosalpingiosis del apéndice cecal incluyen endometriosis apendicular,

quistes de inclusión mesoteliales, lesiones epiteliales intestinales, remanentes mesonéfricos, tumor seroso maligno o limítrofe de peritoneo, adenocarcinoma metastásico, mesotelioma maligno y adenocarcinoma papilar seroso de peritoneo. El diagnóstico diferencial con endometriosis se realiza por ausencia de estroma endometrial, definitorio de endosalpingiosis. La coloración inmunohistoquímica CD10 puede ser útil para confirmar la ausencia de este estroma. La positividad a calretinina y D2-40 generalmente confirman el diagnóstico. Por otra parte, los quistes de inclusión mesotelial tienen una sola capa de recubrimiento con células aplanadas o cúbicas. El hallazgo del epitelio mülleriano de transición descarta la presencia de adenocarcinoma de ovario, endometrio o cuello (1,9).

La endosalpingiosis se puede observar en asociación con tumores del ovario, especialmente los tumores serosos limítrofes, solos o en combinación con implantes tumorales. Dado que la distinción entre las dos entidades no siempre es clara, la endosalpingiosis siempre debe plantear la posibilidad de enfermedad metastásica. Además, su presencia asociada con tumores limítrofes serosos ováricos es el único factor significativo predictivo de recurrencia de estos tumores (1,10). También existen informes de asociación con linfangioleiomiomatosis retroperitoneal (9).

La endosalpingiosis puede volverse sintomática por irritación mecánica de los órganos abdominales. La extirpación quirúrgica extensa puede abolir efectivamente los síntomas (6). El tratamiento en mujeres con dolor pélvico (con o sin endometriosis asociada) puede ser similar para aquellos casos de endometriosis. Cuando aparece infertilidad asociada, la conducta terapéutica no difiere a la del resto de pacientes que presentan endosalpingiosis. En los casos en los que exista tumoración se deberá realizar resección de la lesión (5).

En conclusión, la endosalpingiosis del apéndice cecal es una condición benigna de etiología desconocida, encontrada en forma incidental, de la cual poco se conoce, generalmente es asintomática pero puede estar asociada a endometriosis o tumores pélvicos. Debido a su rareza, el conocimiento de las características histopatológicas específicas es importante para el diagnóstico correcto. Se necesitan estudios para conocer su comportamiento clínico, para diseñar protocolos que permitan el manejo de casos asociados a dolor pélvico e infertilidad.

### Conflictos de interés

Los autores declaran no tener ningún conflicto.

### Referencias

- Chakhtoura G, Nassereddine H, Gharios J, Khaddage A. Isolated endosalpingiosis of the appendix in an adolescent girl. *Gynecol Obstet Fertil*. 2016; 44: 669-671. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Prentice L, Stewart A, Mohiuddin S, Johnson NP. What is endosalpingiosis? *Fertil Steril*. 2012; 98: 942-7. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Park J, Kim TH, Lee HH, Chung SH, Jeon DS. Endosalpingiosis in postmenopausal elderly women. *J Menopausal Med*. 2014; 20: 32-4. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Cajigas A, Axiotis CA. Endosalpingiosis of the vermiform appendix. *Int J Gynecol Pathol*. 1990; 9: 291-5. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Tallón-Aguilar L, Olano-Acosta C, López-Porras M, Flores-Cortés M, Pareja-Ciuró F. Endosalpingiosis de la apéndice. *Cir Esp*. 2009 Jun;85(6):383. *Histopathology*. 2001; 39: 645-6. [[Google Scholar](#)]
- Habiba M, Brosens I, Benagiano G. Müllerianosis, endocervicosis, and endosalpingiosis of the urinary tract: A literature review. *Reprod Sci*. 2018; 25: 1607-18. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Bellelis P, Podgaec S, Abrão MS. Environmental factors and endometriosis: a point of view. *Rev Bras Ginecol Obstet*. 2014; 36: 433-5. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Kim HS, Yoon G, Lee YY, Kim TJ, Choi CH, Lee JW, Kim BG, Bae DS, Song SY. Mesothelial cell inclusions in pelvic and para-aortic lymph nodes: a clinicopathologic analysis. *Int J Clin Exp Pathol*. 2015; 8: 5318-26. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Pollheimer MJ, Leibl S, Pollheimer VS, Ratschek M, Langner C. Cystic endosalpingiosis of the appendix. *Virchows Arch*. 2007; 450: 239-41. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]
- Djordjevic B, Malpica A. Ovarian serous tumors of low malignant potential with nodal low-grade serous carcinoma. *Am J Surg Pathol*. 2012; 36: 955-63. [[PubMed](#)] [[Google Scholar](#)]

**Como citar este artículo:** Reyna-Villasmil E, Torres-Cepeda, D. Endosalpingiosis del apéndice cecal. Reporte de un caso. *Avan Biomed* 2018; 7: 182-5.



Avances en Biomedicina se distribuye bajo la Licencia Creative Commons Atribución -No Comercial -Compartir Igual 3.0 Venezuela, por lo que el envío y la publicación de artículos a la revista son completamente gratuitos.