CASO CLÍNICO

Cáncer en el seno pilonidal

Reporte de dos casas y revisión de la bibliografía

Dres. Emil Kamaid Toth ¹, Eduardo Olive Gabriel Giannini ², Jorge Pereyra ², Héctor Juri ³, Daniel Bordes ⁴, Hugo Deneo ⁵, Emil Kamaid Buchdid ⁶

Resumen

Los autores presentan dos casos de carcinoma desarrollado en un quiste pilonidal; por tratarse de una afección extremadamente rara y no haber encontrado referencias a la misma en la bibliografía nacional, se analizan las características del tratamiento, la evolución y se hace una revisión de la bibliografía sobre el tema.

Palabras clave: Quiste pilonidal

Neoplasmas

Summary

The authors present two cases of carcinoma developed in a pylonidal cyst; as it is an extremely rare disease and as no references were found in national literature, the authors analyze treatment features, evolution, and make a bibliographical review on the subject.

Introducción

La enfermedad pilonidal también llamada fístula coccígea, es una patología común y bien conocida por los cirujanos. El desarrollo de un cáncer a su nivel es una muy rara complicación, con aspectos similares al que se origina en otros procesos inflamatorios crónicos como fístulas perianales, secundarias a osteomielitio crónicas, o cicatrices, especialmente de quemaduras⁽¹⁾.

- 1. Residente
- 2. Asistentes de Clínica Quirúrgica
- 3. Asistente de Cirugía Plástica
- Asistente de Clínica Quirúrgica
- 5. Profesor Adjunto Anatomía Patológica
- Profesor Agregado de Clínica Quirúrgica.
 Clínica Quirúrgica «A». Director Prof. Dr. Francisco Crestanello.
 Presentado a la Sociedad de Cirugía del Uruguay el 15 de junio de 1994

Correspondencia: Dr. E. Kamaid. Uruguay 1638. Montevideo.

Casos clínicos

Caso 1

MUCAM. Reg: 60.917.

A.H.D. 60 años. Sexo masculino.

Antecedentes personales: infarto agudo de miocardio hace 10 años.

Consulta por una lesión vegetante y ulcerada en región coccígea de un año de evolución. Comienza hace 30 años con un proceso fistuloso coccígeo que se absceda y es drenado quirúrgicamente, luego de lo cual persiste con procesos supurados que requieren drenaje en varias oportunidades.

Al examen se destaca un paciente con abundante vello corporal con dos lesiones vegetantes y ulceradas en la región coccígea, de bordes friables, fácilmente sangrantes, de 6 cm de diámetro la mayor y otra lesión menor de similares características. Junto a estas lesiones se observan algunos trayectos fistulosos que drenan material purulento. La piel circundante presenta elementos de piodermitis importante (figura 1).

Se realizó tratamiento con antibióticos en base a cefradina y metronidazol durante 10 días y curaciones locales mejorando parcialmente la supuración y las lesiones de piodermitis. Con sospecha clínica de posible cáncer injertado en antigua fístula coccígea, se opera el 30 de mayo de 1992. La biopsia extemporánea de ambas lesiones confirma que se trata de un carcinoma epidermoide. Se efectúa resección amplia del proceso patológico pasando a 2 cm del borde de las mismas, y llegando en profundidad a la aponeurosis sacra y la de ambos glúteos que están alejadas de la lesión. Mechado con gasa iodoformada, piel abierta.

Anatomía patológica (Dr. Deneo). Carcinoma epidermoide queratinizante bien diferenciado que infiltra piel y subcutáneo en una altura de 20 mm con bordes de resección libres salvo en una zona que se encuentra a 4 mm. Existen además



Figura 1.

focos supurados y anexos pilosos alterados como es habitual observar en la enfermedad pilonidal.

Evolución posoperatoria. A los 15 días aparecen formaciones vegetantes de caracteres similares a la inicial que se desarrollaron rápidamente en el margen de resección a la izquierda (figura 2).

Segunda operación. 27 de junio de 1992. Amplia resección pasando a 3 cm de los bordes de la lesión incluyendo en profundidad la aponeurosis sacra y glútea. La brecha resultante se cierra con un gran colgajo rotado de piel y celular de región glútea derecha (Dr. H. Juri) evolucionando hacia la cicatrización sin incidentes.

La anatomía patológica de la pieza revela que se trata de una recidiva precoz con igual histología que la lesión inicial, quedando los límites laterales del tumor entre 20 y 30 mm de los bordes de sección.

Evolución posoperatoria alejada. No se realizó ningún tipo de tratamiento complementario previa consulta con oncólogo. Control clínico a los 6 y 12 meses sin evidencias de recurrencia local ni regional.

Caso 2

E.A.H. 63 años. Sexo masculino. Hospital de Clínicas. Reg. 611.621.

Antecedenteo personales: recambio valvular aórtico con válvula biológica en 1991. Hace 15 años operado de fístula coccígea luego de larga historia de supuración que obligaron a reiterados drenajes. Se desconoce anatomía patológica. Pasa bien varios años presentando esporádicamente escaso drenaje purulento por la cicatriz operatoria. Hace cuatro años nota a nivel de la

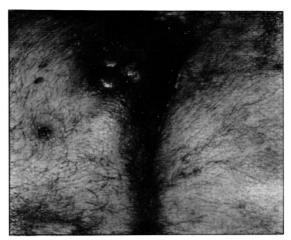


Figura 2.

misma la aparición de una tumoración de crecimiento lento y progresivo acompañado de dolor, supuración y sangrado moderado por la que recién consulta en policlínica el 12 de noviembre de 1993.

Al examen en región sacro-coccígea sobre zona de cicatriz previa, tumoración de 6 por 4 cm, ovoidea, vegetante, ulcerada, firme, con supuración a su nivel, móvil sobre planos profundos. No adenopatías inquinales.

Con sospecha de lesión blastomatosa se efectúa biopsia incisional con anestesia local el 29 de noviembre de 1993, que es informada como hiperplasia seudoepiteliomatosa del epitelio escamoso.

Tratamiento. Previo tratamiento antibiótico y a pesar de no tratarse de una lesión neoplásica según el informe, se decide operarlo con la finalidad de resecar a la misma ampliamente y hacer un estudio completo de la pieza.

Operación el 21 de diciembre de 1993: resección amplia con incisión vertical en gajo de naranja extirpando la aponeurosis sacra, mechado con gasa iodoformada.

Evoluciona sin incidentes a destacar.

Informe anatomopatolégico. (Dres. Rodríguez, Caserta). Carcinoma epidermoide bien diferenciado queratinizante, el borde de sección está libre de tumor pero en la zona profunda un sector se encuentra a 5 mm de la lesión.

Evolución. Se consulta a Departamento de Oncología —que a pesar de la proximidad de la lesión en el sector profundo— decide no realizar tratamiento complementario. Se controla en forma mensual manteniéndose a los seis meses en cura clínica.

Tabla 1. Cáncer en enfermedad pilonidal. Tipos histológicos

Carcinoma epidermoide	81,08 %
Carcinoma células basales puras	8,01 %
Carcinoma mixto	5,4 %
Adenocarcinoma	2,7 %
No especificados	2,7 %

Comentario

Epidemiología

La enfermedad pilonidal es una afección común y consiste en un seno o fístula situada a corta distancia por detrás del ano, habitualmente sobre la región coccígea y conteniendo por lo general pelos (2).

Según Goligher es conocida desde el siglo pasado (Anderson, 1847), siendo Hodges en 1880 quien le dio el nombre de seno pilonidal con el que es conocida sobre todo en la literatura de habla inglesa.

Su incidencia aumentó notablemente durante la Segunda Guerra Mundial, especialmente en la tropa angloamericana, llamándosela en ese entonces "enfermedad del jeep" (3).

Las complicaciones inflamatorias como celulitis, abscesos, trayectos fistulosos recurrentes son comunes y conocidas. La degeneración maligna es —por el contrario— una complicación infrecuente (ningún caso en los pacientes atendidos durante la Segunda Guerra Mundial)⁽⁴⁾.

Su porcentaje varía de 0,08 a 0,01% en series generales de pacientes con enfermedad pilonidal (5), similar al desarrollado en fístulas perianales (6).

Para Matt ⁽⁷⁾ la baja incidencia del carcinoma en esta enfermedad podría ser el resultado de la resección temprana en la mayoría de los casos.

Según Pilipshen $^{(5)}$ desde 1900 a 1981 existían 36 casos publicados, agregándose en los últimos años seis casos más $^{(8-11)}$

En la misma revisión se constata un incremento en los últimos años, del cual se ignora si se debe a un aumento en la incidencia de la enfermedad o a un estudio más exhaustivo de las piezas (5).

Los tipos histológicos encontrados son variados predominando francamente los carcinomas epidermoides. Incluyendo los casos presentados se obtienen los porcentajes de la tabla 1.

Hay un neto predominio en el sexo masculino (83%), con una edad media de 52 años, siendo la duración promedio de los síntomas de la enfermedad pilonidal de aproximadamente 22 años (5).

Diagnóstico

El diagnóstico de carcinoma en el seno pilonidal se presume por la clínica y se sospecha por las siguientes características: fístula coccígea crónica a la que se suman, lesión vegetante, ulcerada, de bordes friables, sangrante, de rápida evolución (5). Ocasionalmente la lesión se descubre en la pieza de resección en el examen anatomo patológico de rutina; presentación ésta más frecuente en los pacientes jóvenes, en los que no se sospecha la enfermedad carcinomatosa por la macroscopía. En estos casos se demuestra la continuidad histológica del cáncer en los diferentes tejidos del seno pilonidal y se confirma así su verdadero origen (12).

El tipo de carcinoma más frecuente es el epidermoide en su mayoría bien diferenciado. Dentro de los elementos asociados a la formación del carcinoma se destacan la sucesión de procesos inflamatorios crónicos y sobreinfección bacteriana. El mismo tipo celular de carcinoma epidermoide se ha observado en fístulas perianales crónicas ⁽⁶⁾ o en trayectos fistulosos de osteomielitis crónica ⁽¹⁾. En ambas situaciones los factores nombrados son comunes pero su verdadero efecto carcinogénico no está bien determinado ⁽⁵⁾.

El diagnóstico diferencial más importante se plantea con la hiperplasia seudocarcinomatosa del epitelio escamoso, que se puede asociar a cualquier inflamación crónica severa.

La diferenciación se establece en base al pleomorfismo nuclear, el grado de disqueratosis, figuras mitóticas múltiples atípicas e invasión del tejido vecino (5.13).

La biopsia intraoperatoria por congelación no siempre es efectiva para el diagnóstico correcto de cáncer, ya que los procesos inflamatorios pueden simular algunas de sus características (atipía celular, tasa de mitosis aumentada). Por este motivo la muestra de tejido debe ser de un tamaño generoso.

La indemnidad de los márgenes de resección puede ser un problema, tanto para el cirujano como para el patólogo, dado los cambios inflamatorios en el seno pilonidal.

En el estudio con cortes congelados esto se puede determinar con relativa confianza, pero la extensión del tumor por espacios perineurales o pequeños vasos puede escapar a este método de detección ⁽⁵⁾.

Hecho el diagnóstico histológico de carcinoma por biopsia extemporánea, el marcado de los bordes con tinta china puede ser útil para evaluar lo adecuado del margen de resección, máxime que como luego se verá el éxito del tratamiento depende fundamentalmente del mismo. En cuanto a la valoración paraclínica de la extensión lesional, algunos autores aconsejan estudios radiológicos del sacro y últimamente centellograma óseo ^(5.8), otros incluyen el estudio de recto y sigmoide ⁽⁸⁾. Su real valor no puede ser juzgado por el escaso número de casos.

Tratamiento y resultados

La cirugía sigue siendo el procedimiento más importante en el tratamiento de estas lesiones.

En el preoperatorio se debe hacer una correcta evaluación de la exéresis a efectuar y planear la misma en conjunto con el cirujano plástico.

Para disminuir las complicaciones infecciosas es importante un correcto tratamiento local, al que se debe agregar antibióticos por vía sistémica cuando el proceso inflamatorio es severo.

Cuando no hay evidencias de adenopatías inguino crurales metastásicas la exéresis debe incluir un margen adecuado de piel (no menor a 1 cm), tejido subcutáneo, fascia presacra y aponeurosis glútea. En algunos casos se ha resecado el coxis y parte del sacro por estar macroscópicamente infiltrados.

Dada la supuración que a menudo acompaña estas lesiones la mayoría de los casos ha sido tratada dejando abierta la brecha; cuando la supuración no es muy importante, algunos (Pilipshen) prefieren cerrar con un grueso colgajo rotado y otros han tenido éxito con injertos^(14–16).

Cuando existen clínicamente adenomegalias inguinales (hecho que se ve solo en 22% de los casos de la revisión de Pilipshen) existe la posibilidad de que éstos no sean metastásicos, por lo que no se aconseja actuar sobre ellos en la primera intervención.

Los vaciamientos ganglionares reportados fueron llevados a cabo algunos antes y otros luego de la cicatrización completa de la herida primaria, y con diagnóstico confirmado por la histología. El pronóstico de esos casos con compromiso ganglionar ha sido malo no sobreviviendo ninguno los dos años, y no hay datos que permitan afirmar que un vaciamiento profiláctico los hubiera mejorado (5).

La sobrevida a los cinco años con esta conducta es de 61%, pero existe 50% de casos que recidivaran local o regionalmente. La mayor parte de estas recidivas (42%) han sido en el sitio de resección y aparecieron en el primer año. Hay algunos pocos casos que con resecciones múltiples de estas recidivas han logrado largos intervalos libres de enfermedad (5).

Para evitar este problema se ha usado la radioterapia posoperatoria (17,18) con resultados que no se pueden evaluar. También se ha usado radioterapia en casos de exéresis incompletas o de recidivas locales (Boukalik, ¹⁹) con buenos resultados en alguno de ellos mientras que en otros no altera la progresión de la enfermedad.

En esta enfermedad en que la diseminación hematógena es muy poco frecuente, la quimioterapia juega un rol muy limitado y con resultados no evaluables por el escaso número de casos (16,20)

La clave para lograr una evolución favorable de la enfermedad es realizar un diagnóstico precoz, un tratamiento primario radical y un seguimiento fundamentalmente clínico estricto. Para esto es indispensable el conocimiento de la enfermedad pilonidal y de sus complicaciones, aun las menos frecuentes, como las presentadas en este trabajo.

Bibliografía

- Bowers RF, Young JM. Carcinoma arising in scars, osteomylitis and fistulae. Arch Surg 1960; 80: 564.
- Goligher JS. Surgery of the colon rectum and anus. London: Baillere–Tindall 1987; 223: 210–2.
- Buie LA. Jeep disease (pilonidal disease of mechanized warfare). South Med 1944; 37: 103.
- Dennigs JS, Frederich JF, Gold D et al. Pilonidal disease: Review of the literature and method of closure. Am Surg 1954; 20: 1250.
- Pilipshen SJ, Gray G, Goldsmith E et al. Carcinoma arising in pilonidal sinuses. Ann Surg 1981; 193: 506.
- Mc Anally A, Docherty M. Carcinoma developing in chronic cutaneous sinuoses and fistula. Surg Gynecol Obstetr 1949; 560: 87–8.
- Matt JG. Carcinoma degeneration of pilonidal cysts. Dis Colon Rectum 1958; 1: 353.
- Sagi A, Rosenberg L, Greiff M, Mahler D. Squamuos-cell carcinoma arising in a pilonidal sinus: A case report and review of the literature. J Dermatol Surg Oncol 1984; 10(3): 210-2.
- Fasching MC, Meland NB, Woods JE et al. Recurrent squamous carcinoma arising in pilonidal sinus tract—multiple flap reconstructions: report of a case. Dis Colon Rectum 1989; 32: 153–8
- Adamek J, Antos F, Zeman V. Spinocellular carcinoma as a rare complicaron of depilonidal sinue. Rozhl–Chir 1990; 69(3): 139–43.
- Kim YA, Thomas MD. Metastatic squamous cell carcinoma arising in a pilonidal sinus. J Am Acad Dermatol 1993; 29: 272-4
- Goodal P. The aetiology and treatmen of pilonidal sinus a review of 163 patients. Br J Surg 1961; 49: 212.
- Salvadori B y col. Manual de Oncología Quirúrgica. 2ª Ed. Milán: Masson; 1988.
- Hibner R, Cohn R. Squamous cell carcinoma complicating a pilonidal sinus. Cancer 1956; 9: 760
- Terry J, Gaisford J, Hanna D. Pilonidal sinus carcinoma. Am J Surg 1961; 102: 465.
- Lerner H, Deitrich G. Squamous cell carcinoma of the pilonidal sinus. Report of a case and review of the literature. J Surg Oncol 1979; 11(2): 177.
- Boutet M. Un cas d'epithelioma developpe sur un sinus pilonidal. Laval Med 1969; 40: 156.
- Brown H, Rivera J. Epidermoid carcinoma arising in a pilonidal sinus. Inter Surg 1964; 50: 436.
- Boukalik W, Salwan F. Squamous carcinoma arising in a pilonidal sinus. Case report. Ann Surg 1962; 156–7.
- Yamada Y, Osata S. Case of aquamous—cell carcinoma arising in a pilonidal cyst or piodermal chronica abscedens. Jap J Dermatol 1972; 82(5): 307.