



Quiste hidatídico retro-peritoneal: Una enfermedad frecuente en una ubicación inusual

Stephanie Subercaseaux V., Cecilia Besa C., Álvaro Burdiles O., Álvaro Huete G. y Óscar Contreras O.

Pontificia Universidad
Católica de Chile, Santiago.
Hospital Clínico
Departamento de Radiología.

Recibido: 15 de junio de 2010
Aceptado: 18 de octubre de 2010

Correspondencia a:
Oscar Contreras Olea
ocontrer@med.puc.cl

Retroperitoneal hydatid cyst: A common disease in a rare location

Echinococcal disease remains a major problem within some endemic areas. We report a case of a single primary echinococcal cyst located in the retroperitoneal space. A 54-year-old woman, born in a rural area of southern Chile, was admitted with a 3-month history of right hip pain and painful swelling of the gluteal region. Hidatid disease was confirmed with serologic test, radiological examinations and histo-pathology. There were no cysts in any other location. A percutaneous drainage was performed and antihelminthics were administered for 12 weeks and is now being closely followed up, with good response to therapy. Especially in the endemic areas hydatid cyst should be considered when evaluating retroperitoneal cystic masses.

Key words: Hydatid disease, retroperitoneal hydatid cyst, CT, MRI.

Palabras clave: Hidatidosis, quiste hidatídico retro-peritoneal, TC, RM.

Introducción

La hidatidosis es una parasitosis endémica en nuestro país con una mayor frecuencia en el sur del territorio, especialmente en sectores rurales de las regiones de Aysén y Magallanes, en las que existe una gran masa ovina¹. La enfermedad humana es producida por el estado larval de *Echinococcus granulosus*, céstode de alta prevalencia en caninos urbanos y rurales².

Las localizaciones más frecuentes de los quistes hidatídicos son el hígado y el pulmón y juntos conforman 90% de los órganos afectados^{3,4}. En un pequeño porcentaje (< 10%), los parásitos logran traspasar el filtro hepático y pulmonar y, por vía sanguínea, comprometer a otros órganos, o bien, llegar a localizaciones inusuales^{5,6}. Las lesiones quísticas retro-peritoneales son infrecuentes, siendo la hidatidosis una entidad rara en esta ubicación y en una revisión de la literatura médica nacional sólo han sido descritos dos casos^{7,8}.

Presentamos el caso clínico de una mujer con un quiste hidatídico (QH) retro-peritoneal primario, junto a una revisión bibliográfica actualizada del tema.

Caso clínico

Mujer de 54 años, dueña de casa, procedente de Longaví (Región del Maule, Chile), sin antecedentes mórbidos conocidos. Relataba que hacía tres meses tenía compromiso del estado general, sensación febril y coxalgia derecha. No refería haber tenido contacto con animales domésticos, consumía alimentos bien cocidos

y tenía acceso a agua potable desde hacía cuatro años.

Decidió consultar en otro centro, dos meses antes de ser hospitalizada y en sus exámenes destacaban hematocrito: 36%, hemoglobina: 11,4 g/dl., leucocitos: 5.700/mm³, (eosinófilos 5%) y VHS de 70 mm/h. Se le realizó una endoscopia digestiva alta y una electroforesis de proteínas con hallazgos normales. Una ecografía abdominal mostró colelitiasis. Recibió terapia con cloxacilina por vía oral y anti-inflamatorios no esteroideos, sin buena respuesta. Dos semanas previo al ingreso presentó aumento de los síntomas agregándose eritema y aumento de temperatura local en el muslo derecho, con pico febril hasta 39°C axilar, por lo cual fue hospitalizada y trasladada a nuestro centro para su manejo y estudio. La paciente ingresó al Servicio de Medicina con hemodinamia estable y afebril. En el examen físico segmentario destacaba un eritema en el glúteo derecho, con induración sensible y dolor a la movilización pasiva y activa de la cadera derecha. En sus exámenes de ingreso destacaban un hematocrito: 31,8%, hemoglobina: 10,4 g/dl, leucocitos 9.900/mm³ (neutrófilos 62%, eosinófilos 6%), VHS 67 mm/h y PCR 12,3 mg/dL. Las pruebas de función hepática, glicemia, electrolitos plasmáticos, pruebas de coagulación y recuento de plaquetas fueron normales. Se planteó un cuadro infeccioso de tejidos blandos con probable compromiso articular de la cadera derecha y se comenzó antibioterapia ev con cefazolina y clindamicina. Los hemocultivos obtenidos al momento del ingreso fueron negativos.

Se solicitó una resonancia magnética (RM), observándose una gran colección compleja retro-peritoneal derecha, de aproximadamente 13 cm de diámetro máximo, con

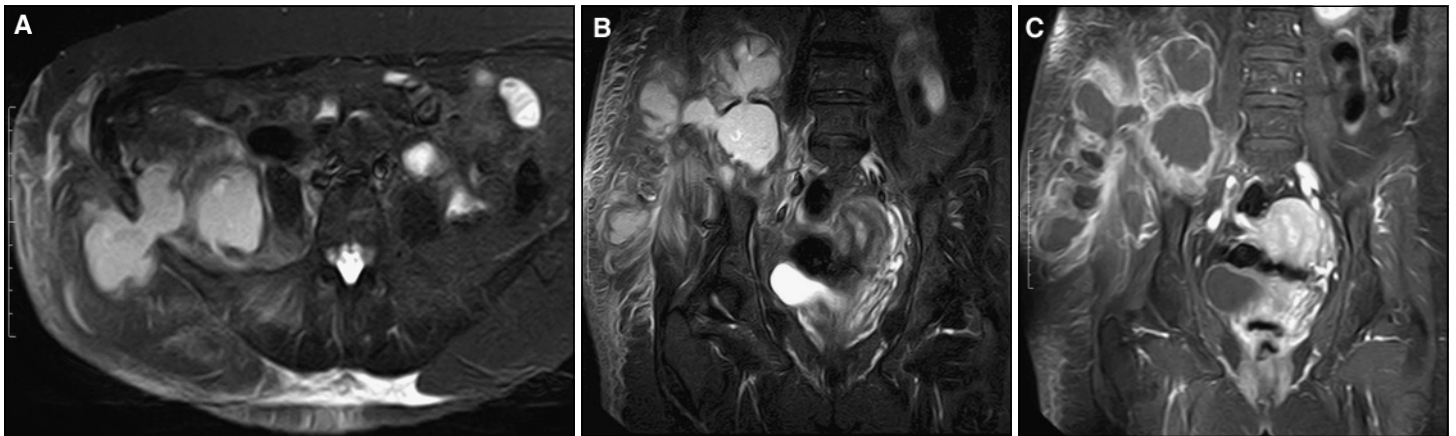


Figura 1. Imágenes de RM STIR axial y coronal (A-B) y con el uso de gadolinio (C), muestran una gran colección compleja en el retroperitoneo, con gruesas paredes hipointensas y extensión a tejidos blandos superficiales a través del triángulo lumbar inferior.

múltiples tabiques en su interior, paredes hipointensas, con extensión a los tejidos blandos superficiales a través del triángulo lumbar inferior. Además una miositis del glúteo medio derecho (Figura 1). Se decidió complementar con una tomografía computada (TC) que confirmó la existencia de un gran absceso retro-peritoneal con extensión al tejido celular subcutáneo de la región lumbar derecha (Figura 2). No se demostró un origen gastrointestinal de la lesión en los estudios de imágenes.

Se decidió entonces efectuar el drenaje percutáneo del absceso bajo visión tomográfica instalando dos catéteres *pig-tail* (Figura 3); el día previo se suspendieron los antimicrobianos y se extrajo aproximadamente 180 cc de líquido purulento espeso sin mal olor. Se tomaron muestras para cultivos aeróbicos y anaeróbicos, tinciones de Gram directo Kinyoun y Ziehl Neelsen, cultivo de Koch, tinción para *Actinomyces* sp, todos los cuales resultaron negativos, pese a haberse suspendido el tratamiento antimicrobiano. Se envió también muestra del líquido aspirado para análisis por anatomía patológica.

Se reanudó la antibioterapia con ceftriaxona y clindamicina ev. En un control de laboratorio destacaba una anemia (Hto 28%), recuento leucocitario de $6.200/\text{mm}^3$, aumento de la eosinofilia a 9% y caída de la PCR a 3 mg/dL. El control tomográfico mostró disminución de tamaño de la colección retro-peritoneal derecha y el líquido obtenido del drenaje fue cada vez más escaso, cambiando de aspecto seropurulento a serohemático.

El informe de anatomía patológica describió en forma macroscópica tres fragmentos laminares de un material blanquecino-amarillento y translúcidos de 1,5 a 2,6 cm de diámetro mayor por menos de 0,1 cm de espesor. Al examen microscópico se observaban fragmentos de estructuras con organización multilaminar, bandas densas y bandas laxas, asociadas a varios cuerpos calcificados,

algunas estructuras de tipo ganchito y exudado leucocitario polimorfonuclear. No se encontraron evidencias de neoplasia en los cortes examinados. La muestra fue estudiada con técnica histológica corriente, cortes seriados en varios niveles, técnicas histoquímicas y con tinciones de Gomori-Grocott y Ziehl-Neelsen. El aspecto morfológico y las pruebas histoquímicas eran compatibles con fragmentos de cutícula de QH viable.



Figura 2. Imagen sagital de TC donde se delimita la extensión del absceso retro-peritoneal.



Figura 3. Drenaje percutáneo de colecciones retro-peritoneales guiado bajo TC, con instalación de dos catéteres de drenaje *pig tail* y disminución del tamaño de la colección.

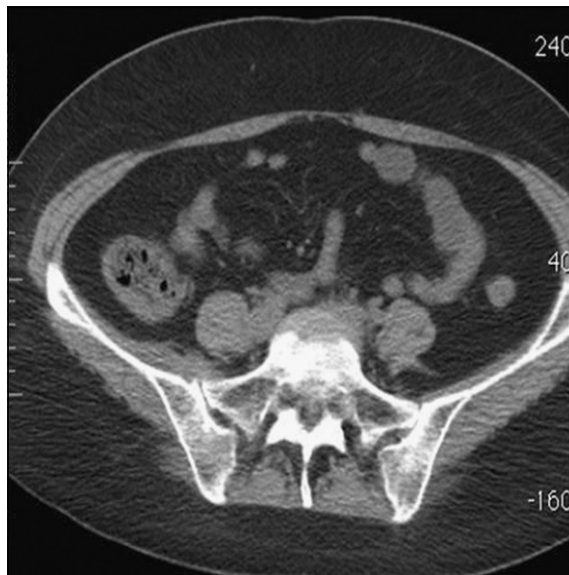


Figura 4. Control tomográfico 10 meses después de su ingreso hospitalario. Se observa significativa disminución de tamaño de la colección de la región retro-peritoneal drenada.

Se confirmó el diagnóstico con ELISA IgG positiva para *E. granulosus* (examen realizado en el laboratorio institucional). Entonces se cambió la antibioterapia a moxifloxacina 400 mg/día v.o. y albendazol 800 mg/día v.o. y se buscó activamente la presencia de quistes hidatídicos (QH) en otros órganos-blanco.

El equipo de Cirugía decidió no realizar una intervención quirúrgica dada la ubicación de la lesión. Se planificó el tratamiento médico y control con imágenes en forma ambulatoria y posible resolución quirúrgica posterior. Un control con TC de abdomen y pelvis dos semanas tras el alta hospitalaria mostraba disminución de tamaño de las colecciones retro-peritoneales y de la región glútea

derecha. Se decidió mantener albendazol 800 mg/día durante 12 semanas y no realizar intervención quirúrgica. La paciente experimentó disminución progresiva de sus síntomas y normalización de los parámetros inflamatorios. Diez meses después, un control tomográfico mostró disminución de tamaño de las colecciones residuales (Figura 4). La paciente continúa en seguimiento con buena evolución a la fecha de enviar este manuscrito (actualmente asintomática en controles anuales con equipo de cirugía), sin colecciones reconocibles en estudios por TC.

Discusión

La hidatidosis es una zoonosis parasitaria del ser humano causada por las larvas de *E. granulosus*, *Echinococcus multilocularis* o *Echinococcus vogeli*. *Echinococcus granulosus*, la única especie identificada en Chile, produce lesiones quísticas y prevalece en áreas donde el ganado se cría con los perros. El céstode *E. granulosus* adulto es pequeño (5 mm de longitud), habita en el yeyuno de los perros (hospedero definitivo), para luego liberar huevos que pasan a las deposiciones. Los huevos pueden ser ingeridos por hospederos intermediarios, que en condiciones naturales son ovejas, cabras, porcinos, ganado, caballos y accidentalmente el hombre. Las larvas o hidátides se desarrollan en el hospedero intermediario, atraviesan la mucosa intestinal pasando a la circulación portal y son transportadas a diversos órganos, especialmente al hígado y a los pulmones⁴.

Las larvas se desarrollan formando quistes hidatídicos uniloculares llenos de líquido, el que se compone de tres capas: la *externa* periquística fibrosa, conformada por células del hospedero; la *intermedia* laminar endoquiste, que es acelular y permite el paso de nutrientes; y la *germinativa* interna, donde las escólices (estado larval del parásito) y la membrana laminar son producidas^{4,9}.

El individuo con hidatidosis puede permanecer asintomático por meses o años y comenzar con manifestaciones clínicas cuando la lesión parasitaria alcanza un tamaño tal que desencadena síntomas por compresión o cuando se complica con rotura o infección, transformándose en un absceso como en el caso de nuestra paciente, situación en la cual la larva muere.

Un quiste retro-peritoneal se define como aquel confinado al espacio retro-peritoneal e independiente de otros órganos. Existen pocos reportes de hidatidosis retro-peritoneal, el primero fue realizado en 1958 por Lockhart y Sapinza¹⁰. Posteriormente, ha habido escasos artículos en la literatura extranjera¹¹⁻¹⁶ y dos casos publicados en la literatura nacional^{7,8}. La frecuencia de QH en esta ubicación se estima en 0,8% en las series de Ismail y cols, en 122 pacientes con hidatidosis¹⁷. Ouakdi y cols reportaron 31 tumores retro-peritoneales de los cuales seis resultaron ser QHs¹².



La diseminación hematogena es una de las hipótesis postuladas en la fisiopatología del QH retro-peritoneal primario, donde los embriones una vez en la circulación no pasarían al hígado y/o pulmones y se implantarían en otros sitios¹⁸. Otra manera sería a través de diseminación linfática desde el intestino hacia los canales torácicos y luego a otros sitios del cuerpo. También se ha planteado que el embrión podría mantenerse en la ampolla rectal y migrar por los vasos hemorroidales alcanzando finalmente una ubicación pre-rectal o retro-vesical¹⁹.

Las presentaciones clínicas más frecuentemente descritas de los QHs en ubicación retro-peritoneal son; masa abdominal²⁰⁻²², dolor abdominal en el flanco¹⁹⁻²¹ y masa subcutánea lumbar^{23,24}. De encontrarse una masa, ésta puede o no ser dolorosa a la palpación. Infrecuentemente se manifiesta a través de dolor abdominal hipogástrico o signos de compresión de órganos¹⁵. Generalmente el cuadro clínico es larvado y los síntomas tienen una duración de varios meses. En una revisión de 14 casos de QHs retro-peritoneales, la duración promedio de los síntomas fue de 9,8 meses (rango de 0-36 meses), con un promedio de edad de 41,4 años (rango 16-80 años), siendo más frecuente las ubicaciones en el espacio retro-peritoneal derecho (50%), izquierdo (35,7%), y retro-vesical y para-vesical en un paciente (7,1%) cada una²¹.

La eosinofilia no es un hecho frecuente en el caso de quistes de ubicación retro-peritoneal²¹⁻²⁴.

El diagnóstico de sospecha es a través de imágenes, apoyado por los antecedentes epidemiológicos y serológicos. La ecografía ha surgido como la herramienta diagnóstica más ampliamente utilizada para la hidatidosis, por el amplio acceso a este examen y su utilidad para definir el número, sitio, dimensiones y vitalidad de los quistes^{25,26}. Los quistes simples no demuestran estructuras internas aunque pueden verse múltiples focos ecogénicos que representan la arenilla hidatídica. Se puede separar el endoquiste del periquiste y el quiste se puede ver unilocular con membranas flotando dentro de la cavidad. Los quistes multivesiculares se manifiestan como colecciones líquidas bien definidas con un patrón de panal de abejas, con múltiples tabiques representando las paredes de las vesículas hijas. Puede existir calcificación de la pared del quiste, visto como un contorno hiperecogénico con sombra acústica posterior. Cuando se observa calcificación total y densa de los quistes se asume que está inactivo^{13,25}.

La TC demuestra más claramente la pared engrosada con calcificaciones y un contenido líquido intra-quístico de densidad mixta, con septos internos que confieren un aspecto multilocular¹⁶⁻²⁵. La RM también muestra la naturaleza quística de las lesiones, que son hipointensas en T1 e hiperintensas en T2; con un típico anillo de baja señal que representa la capa externa del QH, la cual es rica en colágeno²⁷.

En el caso de quistes complicados con infección, las

imágenes demuestran una estructura multiquística con cambios inflamatorios adyacentes con morfología de absceso, como el caso aquí ilustrado.

Considerando las imágenes no específicas de nuestro caso, el diagnóstico diferencial de una masa quística retro-peritoneal debe ser realizado con los quistes embriogénicos (entéricos, urogenitales, dermoides), quistes traumáticos, teratomas y linfagiomias quísticos¹⁷⁻²⁸. Para confirmar el diagnóstico son útiles los tests serológicos, aunque algunos pacientes con hidatidosis pueden no tener respuesta inmune específica demostrable²⁶. La sensibilidad de los tests es inversamente proporcional al grado de secuestro de los antígenos dentro de los quistes²⁹. La detección de IgG e IgE mediante ELISA y la hemaglutinación indirecta (HI) son los métodos más sensibles para el diagnóstico de la hidatidosis humana. Confirmación específica de reactividad puede ser obtenida por demostración de un antígeno específico por ensayos de inmunoblot^{26,30}.

En individuos seronegativos, el diagnóstico presuntivo puede ser confirmado por la demostración de protoescólices o membranas hidatídicas en el líquido obtenido por aspiración percutánea. El informe anátomo-patológico puede confirmar la sospecha diagnóstica de QH al visualizar una pared quística laminada esclero-hialina o escólices en el fluido quístico⁶, como fue en caso en nuestra paciente.

La cirugía sigue siendo el tratamiento quirúrgico de elección; la técnica quirúrgica a emplear y la vía de abordaje dependerán de la localización, tamaño y estado del quiste^{30,31}. Sin embargo, existen tratamientos alternativos y/o complementarios como el empleo de benzimidazoles -el más usado es albendazol- y, más recientemente, inyección de químicos y reaspiración, con la técnica de punción, aspiración, instilación y reaspiración (PAIR)³², usados en los casos en que la cirugía no es posible o es probable que no sea efectiva o en pacientes que rechazan una intervención quirúrgica. Actualmente, el objetivo de la terapia con albendazol es fundamentalmente profiláctico, es decir, está destinado a proteger al paciente en caso de que se produzca escape del contenido del quiste, como sucedió en nuestra paciente^{3,30}. Para el tratamiento del QH retro-peritoneal, además ha surgido una nueva alternativa endoscópica mínimamente invasora con resultados prometedores³³.

Como complicación específica de un QH retro-peritoneal puede ocurrir una ruptura de éste hacia la aorta abdominal infra-renal, por lo cual es importante un diagnóstico oportuno³⁴.

Conclusión

La hidatidosis primaria retro-peritoneal es una entidad infrecuente, pero debe ser considerada en un paciente



que se presenta con una masa quística retro-peritoneal en regiones endémicas como la nuestra. Para establecer un diagnóstico certero se requiere correlacionar la manifestación clínica, exámenes de imágenes y pruebas de laboratorio. Es indispensable descartar otras localizaciones de QHs, especialmente hepática y pulmonar. El tratamiento principalmente utilizado es el quirúrgico. Se debe tratar en forma precoz una vez que se confirma el diagnóstico para evitar potenciales complicaciones.

Resumen

La hidatidosis sigue siendo un problema prevalente en áreas endémicas. Presentamos el caso de un quiste

hidatídico primario ubicado en el espacio retro-peritoneal. Mujer de 54 años, procedente de área rural del sur de Chile, hospitalizada por cuadro de coxalgia derecha y aumento de volumen glúteo, con tres meses de evolución. Se realizó el diagnóstico de hidatidosis complicada por medio de exámenes de imágenes, tests serológicos y anatomía patológica. No se demostraron quistes hidatídicos en otras ubicaciones. Se realizó un drenaje percutáneo del quiste infectado y se administraron antihelmínticos durante 12 semanas y actualmente permanece en seguimiento cercano con buena respuesta al tratamiento. El quiste hidatídico debe ser considerado en el diagnóstico diferencial de masas quísticas retro-peritoneales, especialmente en áreas endémicas.

Referencias

- 1.- Schenone H. Hidatidosis humana en Chile. Seroprevalencia y estimación del número de personas infectadas. *Bol Chil Parasitol* 1999; 54: 70-3.
- 2.- Oberg C, Tebache C, Biolley M A. Helmintos del perro doméstico en la ciudad de Temuco. III Congreso Nacional de Tecnología Médica, 1985, Temuco, Chile.
- 3.- Brunette G, Kozarsky P, Magill A, Shlim D. Chapter 5: Echinococcosis (Hydatid Disease). Brunette G, Kozarsky P, Magill A, Shlim D, Whatley A, editors. *CDC Health Information for International Travel* 2010, 1st ed. 2009. Atlanta: Mosb. Pp 323-5.
- 4.- McManus D, Zhang W, Li J, Bartley P. Echinococcosis. *Lancet* 2003; 362: 1295-304.
- 5.- Engin G, Acunas B. Hydatid disease with unusual localization. *Eur Radiol* 2000; 10: 1904-12.
- 6.- Balik A, Celebi F, Basglu M, Oren D, Yildirgan I, Atamanalp S. Intra-abdominal extrahepatic echinococcosis. *Surg Today* 2001; 31: 881-4.
- 7.- Álvarez R, Alarcón E, González R. Quiste hidatídico retroperitoneal. *Rev Chil Cir* 2002; 54: 536-8.
- 8.- Koffmann B, Covacevich S, León J. Quistes del retroperitoneo. *Rev Chil Cir* 1991; 43: 209-11.
- 9.- Pedrosa I, Saiz A, Arrazola J, Ferreirós J, Pedrosa C. Hydatid disease: radiologic and pathologic features and complications. *Radiographics* 2000; 20: 795-817.
- 10.- Lockhart J, Sapinza V. Primary retroperitoneal hydatid cyst. *Excerpta Med* 1958; 12: 968.
- 11.- Muro I, Sanz J, Recarte J, Hernaez I. Primary retroperitoneal hydatid cyst. *Arch Esp Urol* 2000; 53: 268-71.
- 12.- El Ouakdi M, Ben Fadhel S, Ayed M, Zmerli S. Isolated retroperitoneal hydatid cyst. Apropos of 4 cases. *J Urol (Paris)* 1988; 94: 445-8.
- 13.- Hatipoglu A, Coskun I, Karakaya K, Ibis C. Retroperitoneal localization of hydatid cyst disease. *Hepatogastroenterology* 2001; 48: 1037-9.
- 14.- Aydinli B, Ozturk G, Polat K, Atamanalp S, Ozbey I, Onbas O et al. Extravisceral primary hydatid cyst of the retroperitoneum. *ANZ J Surg* 2007; 77: 455-9.
- 15.- Tepetes K, Christodoulidis G, Spyridakis M, Hatzitheofilou K. Large solitary retroperitoneal echinococcal cyst: a rare case report. *World J Gastroenterol* 2007; 13: 6101-3.
- 16.- Kalogeris K, Christoforidis L, Milioudis N. Primary retroperitoneal pelvic echinococcal cyst. *J Urol* 1986; 135: 1235-6.
- 17.- Ismail M, Al-Dabagh M, Al-Janabi T, Al-Muslih M, Al-Ani M, Rassam S, et al. The use of computerized axial tomography (CAT) in the diagnosis of hydatid cyst. *Clin Radiol* 1980; 31: 287-90.
- 18.- Haddad S, Khairallah A. Surgical consideration of hydatid disease: report of some unusual cases. *Ann Surg* 1940; 111: 597-604.
- 19.- Angulo J, Escribano J, Diego A, Sánchez-Chapado M. Isolated retrovesical and extrarenal retroperitoneal hydatidosis: clinical study of 10 cases and literature review. *J Urol* 1998; 159: 76-82.
- 20.- Ben Adballah R, Hajri M, Aoun K, Ayed M. Retrovesical and retroperitoneal extrarenal hydatid cyst: descriptive study of 9 cases. *Prog Urol* 2000; 10: 424-31.
- 21.- Aydinli B, Ozturk G, Polat K, Atamanalp S, Ozbey I, Onbas O et al. Extravisceral primary hydatid cyst of the retroperitoneum. *ANZ J Surg* 2007; 77: 455-9.
- 22.- Prousalidis J, Tzardinoglou K, Sgouradis L, Katsolis C, Aletras H. Uncommon sites of hydatid disease. *World J Surg* 1998; 22: 17-22.
- 23.- Sánchez J, Alcalde J, Ibarra A, Aguado P, Rodríguez S, Bayón A et al. Retroperitoneal cystic mass. *Postgrad Med J* 1997; 73: 185-6.
- 24.- Yilmaz S, Baydar S, Guncy S, Hoser A, Celik B. Primary hydatid cyst in the retroperitoneal space: role of CT. *Eur Radiol* 2002; 12: 2303-5.
- 25.- Pedrosa I, Saiz A, Arrazola J, Ferreirós J, Pedrosa C. Hydatid disease: radiologic and pathologic features and complications. *Radiographics* 2000; 20: 795-817.
- 26.- Moro P, Schantz P. Echinococcosis: a review. *Int J Infect Dis* 2009 Mar; 13: 125-33.
- 27.- Marani S, Canossi G, Nicoli F, Alberti G, Monni S, Casolo P. Hydatid disease: MR imaging study. *Radiology* 1990; 175: 701-6.
- 28.- Pistolesi G, Procacci C, Caudana R, Bergamo Andreis I, Manera V, Recla M, et al. C.T. criteria of the differential diagnosis in primary retroperitoneal masses. *Eur J Radiol* 1984; 4: 127-38.
- 29.- Zhang W, McManus D. Recent advances in the immunology and diagnosis of echinococcosis. *FEMS Immunol Med Microbiol* 2006; 47: 24-41.
- 30.- Muñoz P. Comentario Editorial: Diagnóstico y tratamiento de la hidatidosis. *Rev Chil Infectol* 2007; 24: 153-4.
- 31.- Smego R, Sebanego P. Treatment options for hepatic cystic echinococcosis. *Int J Infect Dis* 2005; 9: 69-76.
- 32.- Smego R, Bhatti S, Khalij A, Asim Beg M. Percutaneous aspiration-injection-reaspiration-drainage plus albendazole or mebendazole for hepatic cystic echinococcosis: a meta-analysis. *Clin Infect Dis* 2003; 27: 1073-83.
- 33.- Chowbey P, Wadhwa A, Shah S, Sharma A, Khullar R, Soni V et al. Endoscopic management of a retroperitoneal hydatid cyst. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2004; 14: 236-40.
- 34.- Hadjiat N, Graba A, Mansouri H. Rupture of retroperitoneal hydatid cyst into the abdominal aorta. *Ann Vasc Surg* 1987; 1: 483-5.