



CIENCIAS CLÍNICAS Y PATOLÓGICAS
PRESENTACIÓN DE CASO

Tumor de Células de Sertoli del ovario: Reporte de un caso

Sertoli cell tumor of the ovary. A case report

Raquel Durán Bornot^{1,2} , Shivani Samlall¹ , Maydelín Frontela Noda^{1,2}  

¹Instituto Nacional de Oncología y Radiobiología (INOR). La Habana, Cuba.

²Universidad de Ciencias Médicas de La Habana. La Habana, Cuba.

Cómo citar este artículo

Durán Bornot R, Samlall S, Frontela Noda M. Tumor de Células de Sertoli del ovario: Reporte de un caso. Rev haban cienc méd [Internet]. 2020 [citado]; 19(2):e2945. Disponible en: <http://www.revhabanera.sld.cu/index.php/rhab/article/view/2945>

Recibido: 03 de septiembre del 2019.

Aprobado: 05 de febrero del 2020.

RESUMEN

Introducción: Los tumores de Células de Sertoli son una entidad rara, con una frecuencia de 0,2-0,5 % del cáncer de ovario. El diagnóstico inicial de este tipo de tumores es difícil, debido a las variedades histológicas que presenta y a su diferenciación.

Objetivo: Demostrar el valor del completamiento del proceso diagnóstico con técnicas de inmunohistoquímica en tumores ováricos para

identificar una variante rara como el tumor de Células de Sertoli.

Presentación del caso: Se presenta un caso de un tumor de ovario primitivo de Células de Sertoli en una paciente de 43 años de edad, con antecedentes personales de hipotiroidismo, intervenida quirúrgicamente por un tumor sólido del ovario derecho en el Hospital General Docente “Dr. Agostino Neto”. En el



intraoperatorio, se encontró un tumor gigante de aspecto maligno. El resultado anatomopatológico informó un tumor carcinoide típico. La paciente fue remitida al Instituto Nacional de Oncología y Radiobiología, donde la inmunohistoquímica de la biopsia informó un tumor de Células de Sertoli. Actualmente la paciente se encuentra asintomática.

Conclusiones: El diagnóstico anatomopatológico

preciso y la inmunohistoquímica correcta son muy importantes para el manejo y tratamiento de este tipo de tumor.

Palabras claves: Tumores de Células de Sertoli, técnicas de inmunohistoquímica, diagnóstico anatomopatológico preciso, inmunohistoquímica correcta.

ABSTRACT

Introduction: Sertoli cell tumors are a rare entity with an incidence of ovarian cancer of 0,2-0,5 %. The initial diagnosis of this type of tumors is difficult to make due to the histological varieties and its differentiation.

Objective: To demonstrate the value of immunochemical techniques in the completion of the diagnostic process of ovarian tumors aimed at identifying a rare variant such as Sertoli cell tumor.

Case presentation: A 43-year old woman with a primitive Sertoli cell tumor of the ovary is presented. The patient had personal history of hypothyroidism. She underwent surgery at "Dr. Agostinho Neto" General Teaching Hospital because she had been diagnosed with a solid tumor of the right ovary. During the

intraoperative period, a giant tumor with a malignant appearance was found. The pathological result reported a typical carcinoid tumor. The patient was referred to the National Institute of Oncology and Radiobiology where the immunohistochemistry of the biopsy reported a Sertoli cell tumor. Currently, the patient is asymptomatic.

Conclusions: The accurate pathological diagnosis and the correct immunohistochemistry are very important for the management and treatment of this type of tumor.

Keywords: Sertoli cell tumor of the ovary, immunohistochemical techniques, correct immunohistochemistry, accurate pathological diagnosis.

INTRODUCCIÓN

Los tumores de células de Sertoli son una entidad rara, con una frecuencia de 0,2-0,5 % del cáncer de ovario.⁽¹⁾ Estos pertenecen a una variedad histológica incluida dentro de los tumores ováricos del estroma gonadal específico. Están compuestos por células derivadas de los

cordones sexuales (Células de Sertoli) en porciones diferentes, con varios grados de diferenciación. En estos casos las células derivadas del estroma (Células de Leydig) no están presentes. También son nombrados arrenoblastomas o androblastomas, a pesar de



que algunos no presentan manifestaciones endocrinas de virilización e incluso, pueden acompañarse de un síndrome estrogénico. Este tipo de tumores debe sospecharse ante un cuadro de masculinización, amenorrea de aparición brusca e hiperandrogenismo cuyos aspectos esenciales revierten después de la terapia.^(2,3)

El tratamiento es fundamentalmente quirúrgico, ya que la resección del tumor seguida del estadiamiento es la conducta más recomendada. Generalmente se diagnostican en estadios

PRESENTACIÓN DEL CASO

Se presenta el caso de una paciente mestiza, de 43 años de edad, con índice de masa corporal (IMC) de 25,6 kg/m², con antecedentes personales de hipotiroidismo controlada con levotiroxina. No refiere antecedentes familiares de cáncer ginecológico, historia obstétrica de G1P1 y menarquia a los 16 años. Acude al Hospital General Docente “Dr. Agostino Neto”, un centro de atención secundaria de salud de la provincia de Guantánamo, por presentar amenorrea de 2 meses de evolución, acompañada de dolor pélvico que no mejoraba con tratamiento analgésico habitual. También refirió sensación de peso en el bajo vientre.

Como hallazgos positivos al examen físico, se encontró que el abdomen fue doloroso a la palpación profunda en el hipogastrio, sin precisar tumoración. Al examen ginecológico, se constató cuello y útero sin alteraciones, y una tumoración de aproximadamente 10 cm en el anejo derecho, renitente, dolorosa, que hace cuerpo con el útero. Se realizaron estudios de laboratorio,

iniciales. Producen metástasis locorregionales y no a distancia, razón por la cual son considerados como lesiones malignas de bajo grado.^(3,4) El diagnóstico inicial de este tipo de tumores es difícil, debido a las variedades histológicas que presenta y su diferenciación.

Este trabajo tiene el **objetivo** de demostrar el valor del completamiento del proceso diagnóstico con técnicas de inmunohistoquímica en tumores ováricos para identificar una variante rara como el tumor de Células de Sertoli.

cuyos resultados fueron normales. Además, el ultrasonido abdominal y ginecológico informó la presencia de un útero de tamaño y aspecto normales, masa anexial derecha de aspecto sólido que medía 8 x 10 cm de diámetro, que se extendía por detrás del útero y se observó una pequeña cantidad de líquido en el fondo del saco. Se realizó laparotomía exploradora, el 21 de septiembre de 2018, donde se encontró una masa sólida en el ovario derecho, con características malignas, bien adherida al útero. No se encontraron otros hallazgos intraoperatorios. Teniendo en cuenta que no se disponía de medios para realizar la biopsia por congelación, las características malignas del tumor y paridad satisfecha de la paciente, se decidió realizar histerectomía total con doble anexectomía, que transcurrió sin complicaciones durante el acto quirúrgico. El resultado anatomopatológico de la pieza informó una lesión tumoral del ovario derecho que medía 11 x 6 x 4 cm, con necrosis, que correspondía a



carcinoma endometrial con invasión tumoral. El anejo derecho mostró bordes irregulares, invasión vascular e infiltración a la cápsula del tumor. El útero presentó endometrio lineal en fase proliferativa, cuello con quistes de Naboth y endocervicitis crónica. El anejo izquierdo presentó cuerpo lúteo, cuerpo albicans y quistes foliculares. Las trompas se hallaron dentro de los límites histológicos normales.

La paciente fue remitida e inscrita el 19 de noviembre de 2018 en el Instituto Nacional de Oncología y Radiobiología (INOR), en La Habana. A la inscripción, se indicó una revisión de bloques y láminas de la pieza quirúrgica obtenida en el otro Centro. El resultado anatomopatológico informó un fragmento de tejido que presentaba probable tumor carcinoide típico, no se descartó

la posibilidad del origen extraovárico. Se decidió realizar técnicas inmunohistoquímicas (IHQ) para definir el diagnóstico definitivo.

Hallazgos microscópicos del caso

Los resultados de las técnicas histológicas mostraron que mediante la tinción con hematoxilina y eosina (HyE) se observaron túbulos bien formados con estroma fibroso (Figura 1). La evaluación inmunohistoquímica incluyó la expresión de Vimentina por las células de los túbulos (Figura 2A), la expresión de CAM 5.2 por la membrana celular de los túbulos (Figura 2B) y la tinción positiva a CD 56 (Figura 2C). Se observaron resultados negativos para PanCK (-), CEA (-), EMA (-), NSE, Calretinina (-), NT-1(-), TTF-1(-), K20(-), RE (-) y RPO (-).

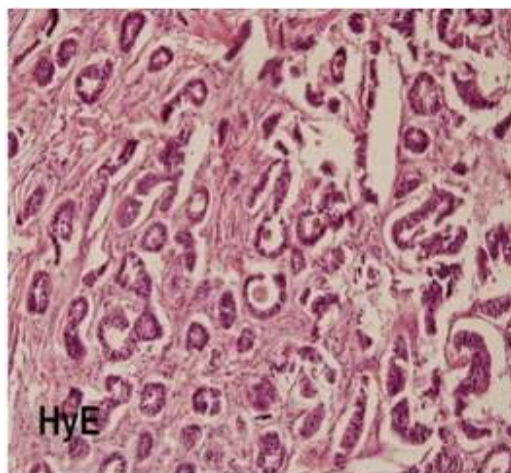


Fig 1. Se observan túbulos bien formados con estroma fibroso (HyE 20x)

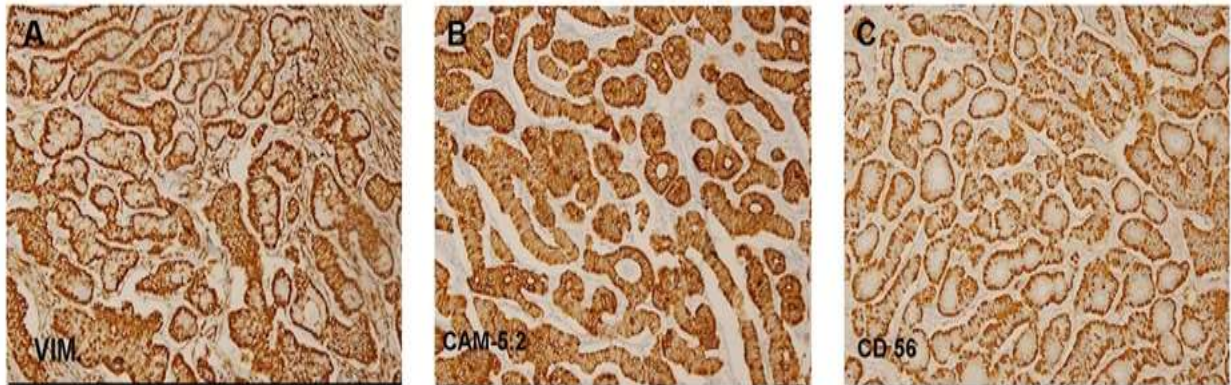


Fig 2. Inmunohistoquímica. A) Células de los túbulos que expresan Vimentina (20x). B) Células de la membrana celular de los túbulos positivas para CAM-5.2 (20x). C) Membranas de las células tumorales positivas para CD 56 (20x).

Evolución del caso: En noviembre de 2018, 3 meses después de la cirugía, la paciente fue evaluada en el Comité Central de Ginecología (CCG). Teniendo en cuenta el informe de la biopsia del posible origen extraovárico, se indicaron estudios de extensión para determinar el origen primario del tumor. En enero de 2019, fue reevaluada en el CCG con los resultados de los análisis indicados previamente.

Marcadores tumorales: Ca 125- normal (8.14u/ml)

Estudios Imagenológicos:

US abdominal y pélvico: Normal

Tomografía contrastada de tórax, abdomen y pelvis: Negativa

PET/CT: Negativo

Colonoscopia: Negativa

Se descartó el origen extraovárico del tumor, mediante las técnicas de inmunohistoquímica se realizó el diagnóstico definitivo de un tumor de Células de Sertoli de ovario. Se concluyó que se encontraba en un estadio IC2 y se decidió el seguimiento en consulta cada tres meses durante el primer año. La paciente tiene siete meses de evolución desde el diagnóstico. La última fecha de notificación fue el 2 de abril de 2019, la paciente se encuentra asintomática y sin alteraciones en los exámenes físico y de laboratorios.

DISCUSIÓN

Los tumores de Sertoli se pueden presentar en cualquier edad, pero son más frecuentes en mujeres menores de 40 años, con un promedio de 25 años. Su aparición después de los 40 años es muy rara.^(3,5) Young RH y cols,⁽⁵⁾ en un análisis

de 207 casos, encontraron una frecuencia de 9 % después de los 40 años.

Estos tumores con frecuencia se presentan combinados con Células de Leydig, los cuales varían en la proporción de Células de Sertoli, de Leydig y/o fibroblastos. Los puros de Sertoli son

estrogénicos y pueden secretar renina, que predispone a las pacientes a la hipertensión. En contraste, los puros de las Células de Leydig son secretores de andrógenos y como resultado sus manifestaciones clínicas incluyen signos de virilización como atrofia de las mamas y aumento del tono de la voz en el 30 % de los casos.⁽⁶⁾

En el presente caso, el trastorno menstrual fue una de las pocas manifestaciones de alguna patología hormonal. Dada que la etiología de los trastornos menstruales es diversa, fue muy difícil la sospecha de esta patología en el diagnóstico inicial, ya que pudo haber sido causada por un descontrol del hipotiroidismo o por un cambio hormonal asociado al climaterio. La literatura reporta con muy poca frecuencia el diagnóstico preoperatorio, a menos que la paciente tenga el tumor acompañado con manifestaciones clínicas de virilización.⁽⁷⁾ La indicación de laparotomía en este caso fue basada en los criterios utilizados en todo tumor anexial sólido, la cual ha sido reportada por otros autores.^(7,8)

Cuando el tumor es productor de andrógenos, cursa en 80 % con niveles elevados de testosterona y androstenediona.

Ocasionalmente, el sulfato de dehidroepiandrosterona (DHEAS, por sus siglas en inglés) puede estar elevado.⁽⁸⁾ Además, los marcadores tumorales que se elevan en este tumor son el alfa-feto proteína (AFP) y la inhibina.^(8,9) Iczkowski y cols.⁽⁹⁾ concluyeron en su estudio que la inhibina es el marcador más sensible, expresado en 91 % de los tumores de Células de Sertoli y en 100 % de los adenomas de Células de Sertoli y de los tumores de Células de Leydig. Este puede ser utilizado en el diagnóstico

diferencial de los tumores de los cordones sexuales frente a los de células germinales. En este reporte, el marcador tumoral que se indicó fue CA 125, el cual no es sensible para el tumor de Células de Sertoli.

Este tipo de tumor se presenta de forma bilateral en menos de 5 % de los casos, con una tasa de malignidad entre 3 y 20 %. Macroscópicamente, los hallazgos descritos por otros autores⁽⁸⁾ señalan que su tamaño puede ser de 10-15 cm, de consistencia sólida y color amarillo, los cuales coinciden con la forma en que se manifiesta en esta paciente. En contraste, debido a que no contamos con marcadores tumorales y estudios hormonales como la testosterona plasmática, no podíamos precisar los cambios hormonales descritos anteriormente.

Se clasifican como tumores con varios grados de diferenciación, con patrón retiforme o con elementos heterólogos.^(10,11) Los bien diferenciados, se consideran benignos y sin riesgo de recurrencia, con una supervivencia global a 5 años de 100 %. Cerca de 11 % de los tumores con diferenciación intermedia y 59 % de los pobremente diferenciados son malignos, con tasas de supervivencia a 5 años de 87 % y 41 %, respectivamente.^(5,10)

En este caso, encontramos el típico patrón tubular sólido o en los cordones de los tumores, que semejan al adenocarcinoma endometriode bien diferenciado, lo cual fue descrito en otros estudios,^(10,11) razón por la cual el diagnóstico inicial fue carcinoma endometriode. En ocasiones pueden mostrar un citoplasma cargado de lípidos y estroma fibroso, algunas células con citoplasma



eosinófilo; en estos casos el pronóstico es excelente.^(10,11)

La expresión inmunohistoquímica común del tumor, incluye tinción negativa para antígeno de membrana epitelial, tinción positiva para inhibina, calretinina y vimentina.⁽¹²⁾ En este caso, la revisión histológica de las láminas inicialmente informó la sospecha de un tumor carcinoide típico, por lo cual fue necesario indicar la inmunohistoquímica para llegar al diagnóstico definitivo.

El tratamiento primario estándar de los tumores de Células de Sertoli de ovario continúa siendo la cirugía. Se plantea la salpingooforectomía unilateral ante el deseo de fertilidad y la histerectomía abdominal total con salpingooforectomía bilateral ante la paridad satisfecha.^(12,13) En ambos escenarios, se debe realizar estadificación quirúrgica completa, que incluye lavados y biopsias peritoneales, omentectomía y biopsia de lesiones sospechosas.⁽¹³⁾ La laparoscopia como abordaje quirúrgico usual en el manejo de este tipo de tumores no se ha logrado generalizar, dada la naturaleza sólida de los mismos. Sin embargo, debe considerarse como la técnica más adecuada, al ser menos invasiva, con mejores resultados estéticos y recuperación rápida.^(13,14)

CONCLUSIONES

El tumor de las Células de Sertoli de ovario es una entidad poco frecuente. Se debe sospechar en pacientes jóvenes, con trastornos menstruales, sobre todo con amenorrea, signos de virilización y tumor sólido por ultrasonido. En los tumores heterólogos, el diagnóstico anatomopatológico

El principal indicador pronóstico es el estadio al diagnóstico y el grado de diferenciación.⁽¹⁵⁾ Afortunadamente, la mayoría de las veces se diagnostican en estadios tempranos, donde el mayor porcentaje de curación se alcanza con el tratamiento quirúrgico.⁽⁵⁾ La terapia adyuvante no ha demostrado una diferencia significativa en la supervivencia libre de enfermedad ni la supervivencia global, y el régimen óptimo aún permanece poco claro. Sin embargo, parece razonable el uso de quimioterapia basada en platino ante tumores metastásicos, de diferenciación intermedia o pobremente diferenciados.^(10,16)

En nuestra paciente el diagnóstico se concluyó en estadio 1C2. Es probable que el hipotiroidismo de la paciente tenga relación con el tumor, como se ha descrito en otros casos,⁽¹⁷⁾ ya que se ha referido una asociación entre este tipo de tumores y las enfermedades del tiroides, cuando en su presentación se exhibe un patrón de herencia familiar. Teniendo en cuenta, por los resultados anatomopatológicos, que el caso es de buen pronóstico, se decidió tratamiento expectante, consiguiendo normal por consulta de ginecología, según protocolo para los tumores de ovario.

resulta ser difícil, y llegan a ser necesarias las técnicas de inmunohistoquímica para hacer el diagnóstico definitivo. De esta manera, si el resultado anatomopatológico es preciso, el manejo y el seguimiento podrán ser adecuados.



REREFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Correa R, Cuello M, Gejman R, Merino P, Etchegaray A, Carrasco M, et al. Tumor de Células de Sertoli y Leydig del ovario. *Rev Chilena Obstetr Ginecol.* 2003; 68(5):399-406.
2. Fleckenstein G, Sattler B, Hinney B, Wuttke W, Osmers R, Emons G. Androblastoma of the ovary: Clinical diagnosis, histopathologic features. *Onkologie.* 2001;24(3):286-9.
3. Qiong Xu, Yu Zou, Xiao Fei Zhang. Sertoli–Leydig cell tumors of ovary. A case series. *Medicine.* 2018;97:42.
4. Zaid AA, Azzam A, Alghuneim LA, Metawee MT, Tarek A, Al-Hussain TO. Poorly Differentiated Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumor in a 16-Year-Old Single Woman: A Case Report and Literature Review. *Obstetrics and Gynecology [Internet].* 2013 [Citado 05/08/2019];1:[aprox. 2 p.]. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1155/2013/858501>
5. Young RH, Scully RE. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumors with a retiform pattern: a problem in histopathologic diagnosis. A report of 25 cases. *Am J Surg Pathol.* 1983; 7:755-71.
6. Chen L, Tunnell CD, De Petris G. Sertoli-Leydig Cell tumor with heterologous element. A case report and review of the literature. *Int J Clin Exp Pathol.* 2014; 1176-81.
7. DiSaia PJ, Creasman WT. The adnexal mass and early ovarian cancer. *Clinical Gynecologic Oncology.* 6 ed. St. Louis: Mosby Inc; 2002.
8. Sandoval Díaz I, Hernández Alarcón R, Torres Arones E, Latorre Zúñiga A. Tumor de Células de Sertoli-Leydig: A propósito de un caso. *Rev Peru Ginecol Obstet.* 2014;60(3):245-9.
9. Iczkowski KA, Bostwick DG, Roche PC, Chevillie JC.:Inhibin A is a sensitive marker for testicular sex cord-stromal tumors. *Mod Pathol.* 1998 Aug; 11(8):774-9.
10. Gui T, Cao D, Shen K, Yang J, Zhang Y, Yu Q, et al. A clinicopathological analysis of 40 cases of ovarian Sertoli-Leydig cell tumors. *Gynecol Oncol.* 2012;127(2):384-9.
11. Grove A, Vestergaard V. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumor of intermediate grade with heterologous elements of rhabdomyosarcoma. A case report and a review of the literature. *Ann Diagn Pathol.* 2006;10(5):288-93.
12. Weng CS, Chen MY, Wang TY, Tsai HW, Hung YC, Yu KJ, et al. Sertoli-Leydig cell tumors of the ovary: a Taiwanese Gynecologic Oncology Group study. *Taiwan J Obstet Gynecol.* 2013;52(1):66-70.
13. Sigismondi C, Gadducci A, Lorusso D, Candiani M, Breda E, Raspagliesi F, et al. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumors. a retrospective MITO study. *Gynecol Oncol.* 2012;125(3):673-6.
14. ML A, AQ M, GM M, Rendón G, Pareja R. Tumores virilizantes del ovario: presentación de dos casos manejados mediante cirugía por monopuerto. *Rev Chil Obstet Ginecol.* 2015;80(2):156-160.
15. Gupta MM, Bahri NU, Ketan R. Sortoli-Leydig Cell Tumor of the Ovary in a Young Female: A Case Report and Literature Review. *Saudi Journal of Medicine & Medical Sciences.* 2015;3(3):233-7.
16. Akman L, Ertas IE, Gokcu M, Terek MC, Sancı M, Sanlı UA, Zekioglu O, Ozsaran AA. Ovarian sertoli–leydig cell tumors: A multicenter long-term clinicopathological analysis of 27 patients. *J Can Res Ther.* 2016;12(1):290-4.
17. León Álvarez M, González Valcárcel K, Rodríguez Santos CI. Tumor de células de Sertoli-Leydig de ovario. Presentación de una paciente. *Medicent Electrón.* 2015;19(1):42-45.



Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Contribución de autoría

Todos los autores participamos en la discusión de los resultados y hemos leído, revisado y aprobado el texto final del artículo.

