Hidatidosis pélvica primaria como presentación inhabitual. Reporte de un caso

Fatme Díaz G.^{1,a}, Juan Andrés Mansilla^{1,b}, Nelson Muñoz^{1,c}

Primary pelvic hydatidosis as an unusual presentation. Case report

Introduction: Hydatidosis, or cystic echinococcosis, is a parasitic zoonosis caused by the *Echinococcus granulosus* worm in the larval stage and is currently classified as the main endemic zoonosis in Chile. The most commonly affected organ is the liver (59-75% of the cases), with primary pelvic echinococcosis being extremely rare (< 1%). However, in endemic countries, it must be considered in the differential diagnoses of cystic lesions of the pelvis. **Case Report:** We present a clinical case of primary pelvic echinococcosis with extension to the left gluteal region. Complementary studies find no evidence of hydatidosis in the liver, lungs or other locations. Considering its rare incidence, its suspicion, diagnosis, and management will be discussed.

Key words: primary pelvic hydatidosis; Echinococcus granulosus; extrahepatic hydatidosis, hydatid cyst.

Resumen

Introducción. La hidatidosis o equinococosis quística, es una zoonosis parasitaria causada por la forma larvaria del cestodo *Echinococcus granulosus* y actualmente se clasifica como la principal zoonosis endémica en Chile. El órgano comúnmente afectado es el hígado (59 -75% de los casos), siendo la hidatidosis pélvica primaria extremadamente infrecuente (< 1%), sin embargo en países endémicos debe ser considerada en los diagnósticos diferenciales de lesiones quísticas de la pelvis. Caso Clínico: Se presenta un caso clínico de hidatidosis pélvica primaria con extensión a la región glútea izquierda, los estudios complementarios no evidencian hidatidosis hepática, pulmonar u otra ubicación. Se discutirá sobre la sospecha, diagnóstico y manejo de ésta, en consideración a su infrecuente incidencia.

Palabras clave: hidatidosis pélvica primaria; Echinococcus granulosus; hidatidosis extrahepática; quiste hidatídico.

¹Universidad de La Frontera. Temuco, Chile. ^ahttps://orcid.org/0000-0002-4755-9659 ^bhttps://orcid.org/0009-0004-4047-1912 ^chttps://orcid.org/0000-0001-5390-4028

Recibido el 2023-11-28 y aceptado para publicación el 2024-01-17

Correspondencia a:

Dra. Fatme Díaz Gasaly. fatme.dg@gmail.com

E-ISSN 2452-4549



Introducción

La hidatidosis o equinococosis quística, es una zoonosis parasitaria causada por la forma larvaria del cestodo *Echinococcus granulosus* y actualmente se clasifica como la principal zoonosis endémica en Chile. La hidatidosis representa un importante problema de salud pública en áreas donde coexisten explotaciones ganaderas y agricultura, especialmente la cría de ovinos. Es una enfermedad de notificación obligatoria diaria desde 1951. La incidencia en Chile oscila entre 1,8-2,5 casos por 100.000 habitantes, siendo las regiones de La Araucanía, Los Lagos y Biobío las que concentran el mayor número de casos¹.

El hospedero definitivo de mayor importancia epidemiológica es el perro, *Canis familiaris*. El ser humano y los animales de producción son hospederos intermediarios, quienes desarrollan la forma quística de la enfermedad^{1,2}.

El órgano más afectado es el hígado con 59% -75% de los casos, siendo la hidatidosis pélvica primaria extremadamente infrecuente con una incidencia < 1% del total².

La enfermedad generalmente es asintomática y en la mayoría de las ocasiones el diagnóstico es un hallazgo en estudios de imágenes. Los casos sintomáticos ocurren por complicaciones como: ruptura, anafilaxia, infecciones, fistulas o por efecto de masa comprimiendo estructuras vecinas^{2,3}.

El objetivo de este trabajo es realizar el reporte de un caso de quiste hidatídico pélvico primario, como ubicación inhabitual de la enfermedad hidatídica.

Caso clínico

Mujer de 22 años sin antecedentes mórbidos, derivada desde un hospital de baja complejidad al servicio de urgencia del Hospital de Temuco, por cuadro de constipación, dolor y aumento de volumen en glúteo izquierdo de 2 meses de evolución; al examen físico se palpa masa en región glútea izquierda blanda, de bordes mal definidos, sin signos inflamatorios, tacto rectal: abombamiento en la cara posterior del recto sin otro hallazgo patológico. Exámenes de laboratorio destaca glóbulos blancos 8530, neutrófilos 45%, eosinófilos 10,2%, hemoglobina 11,3, proteína C reactiva (PCR) 25, creatinina 0,57, Scanner de tórax-abdomen-pelvis (TC) con contraste: Se observa colección redondeada en la cavidad pélvica de 84 x 100 x 93 en sus eje transverso, antero-posterior y craneo-caudal con pared gruesa que realza y contenido hipodenso con vesículas hijas en su interior. Condiciona efecto de masa sobre el útero, anexos y asas intestinales. Se extiende a la región glútea izquierda, formando otras dos colecciones ovalas de bordes lobulados de 65 x 78 x 62 mm y 61 x 27 x 29 mm de semejantes características al anterior descrito, contactan músculo glúteo mayor izquierdo en su aspecto más profundo y medial. Impresión: Imagen sugerente de hidatidosis pélvica con extensión a región glútea izquierda. Sin evidencia de imágenes sugerente de hidatidosis hepática, pulmonar u otra ubicación. (Figura 1). Resonancia magnética de pelvis (RM): Se observa colección redondeada en la cavidad pélvica de 84 x 100 x 93 mm en sus eje transverso, antero-posterior y cráneo-caudal con pared gruesa que realza y contenido hipodenso con vesículas hijas en su interior. Condiciona efecto de masa sobre el útero, anexos y asas intestinales. Se extiende a la región glútea izquierda, formando otras dos colecciones ovalas de bordes lobulados de 65 x 78 x 62 mm y 61 x 27 x 29 mm de semejantes características al anterior descrito, contactan músculo glúteo mayor izquierdo en su aspecto más profundo y medial. Se asocia a leve cambio inflamatorios de tejido adiposo circundante. Se decide hospitalizar para resolución quirúrgica, lo cual se realiza a las 72 horas de su ingreso al hospital, en este contexto se decide no iniciar albendazol en el preoperatorio.

Cirugía

Posición de navaja sevillana. Incisión parasacrocoxígea izquierda, apertura del celular permite acceder a quiste mal delimitado del cual emerge abundante pus, sin mal olor, además de membranas hidatídicas las cuales se envían a biopsia. Al explorar cavidad se evidencia en el piso pélvico una comunicación de 2 cm hacia el espacio supra elevador

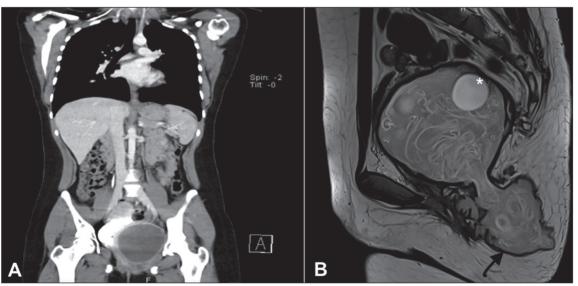


Figura 1. Estudio preoperatorio. **A.** TAC TAP. Quiste hidatídico pélvico sin evidencia de otras localizaciones. **B.** RM Pelvis: Imagen compatible con quiste hidatídico pélvico con contenido hipointenso y vesículas hijas en su interior (asterisco blanco), extendiéndose a región glútea izquierda (flecha negra).

extraperitoneal. Se realiza aseo de la cavidad con abundante suero fisiológico y povidona. Se estima una cavidad de 12 x 15 cm de diámetros en íntima relación a la pared lateral del recto; instalación de drenaje látex a la cavidad, el que se retira al séptimo día dado escaso contenido serohemático. Paciente evoluciona de manera favorable, alta al octavo día posoperatorio.

Control ambulatorio sin evidencia de complicaciones, se rescata biopsia informada como: Membranas hidatídicas. Se inició tratamiento con albendazol (10mg/kg/día) dividido en 2 dosis por 21 días, completando 3 ciclos con control seriado de función hepática. Al tercer mes del posoperatorio se realiza control con RM pelvis: Cambios secundarios a quistostomía con periquística colapsada, sin evidencia de colección residual, fístulas ni líquido libre peritoneal (Figura 2).

Discusión

La equinococosis es una enfermedad endémica en América del Sur, los humanos son hospederos intermediario y se infectan a través del consumo accidental de huevos de parásitos^{1,2}. El quiste hidatídico es un estadio larvario del género *Echinococcus granulosus* y puede crecer en todos los órganos o tejidos del cuerpo. El hígado es el órgano más infectado (59%-75%), seguido de los pulmones (27%), riñones (3%), sistema musculoesquelético (1%-4%) y la pelvis (0,2%-2,25%), respectivamente².

La hidatidosis extrahepática o extrapulmonar es una presentación poco común, representando menos del 10% de todos los casos de esta enfermedad; sin embargo, no está claro qué porcentaje se asocia a infección primaria o secundaria por afectación de otro órgano. Una serie publicada de 1.257 casos de hidatidosis en un solo centro, 121 (9,6%) tenían compromiso retroperitoneal, sin embargo, solo 4 casos (0,3%) fue localización primaria⁴.

La localización pélvica aislada de la hidatidosis, requiere un alto índice de sospecha, ya que, al ser una forma inusual de presentación, dificulta el diagnóstico y hace mandatorio considerar esta enfermedad en los diagnósticos diferenciales de tumores musculoesqueléticos y/o retroperitoneales. Las lesiones pélvicas pueden variar desde lesiones puramente quísticas hasta lesiones con un componente sólido predominante⁶.

El diagnóstico de hidatidosis, se basa en los antecedentes epidemiológicos, manifestaciones clínicas, hallazgos compatibles en imágenes, pruebas de laboratorio como un recuento de eosinófilos

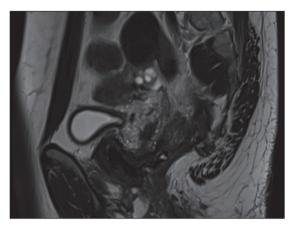


Figura 2. RM Pelvis tercer mes posoperatorio: cambios secundarios a quistostomía, sin evidencia de recidiva.

elevados asociado a reacciones de hipersensibilidad, o detección de anticuerpos^{1,3,5}.

De los factores de riesgo, uno de los más significativos es vivir en áreas endémicas o rurales, habitar con caninos que se alimenten con vísceras de ganado; consumir ganado sacrificado en lugares no certificados; y tener antecedentes familiares¹⁻³. En nuestro caso, la paciente reportada vive en una comuna de la Región de la Araucanía, en sector rural donde se cría ganado para consumo humano.

Las manifestaciones clínicas van a depender de la localización del quiste, tamaño y presencia de complicaciones. Los quistes pequeños y/o calcificados pueden permanecer asintomáticos. Sin embargo hay quistes que se manifiestan con dolor (56%), déficit neurológico (37%), aumento de volumen y compresión de estructuras vecinas (9%); dentro de las complicaciones destacan: shock anafiláctico, sobreinfección con abscesos hidatídicos, siembra peritoneal, insuficiencia renal por uropatía obstructiva, infertilidad y otros^{5,6}. La baja frecuencia y lenta progresión dificultan el diagnóstico preoperatorio.

En cuanto al diagnóstico serológico, existen técnicas de laboratorio para la detección de anticuerpos circulantes. Actualmente se utiliza en Chile métodos de enzimoinmunoensayo (ELISA) y Western blot con una alta sensibilidad y especificidad, 98% y 85%, respectivamente; estas permiten detectar anticuerpos específicos contra antígenos del parásito. ELISA se utiliza para tamizaje (detección de IgG) y Western blot es la técnica de confirmación en pacientes adultos (detecta IgG, IgM e IgA). En todos los casos, la negatividad de una prueba serológica no descarta la presencia de un quiste hidatídico, tanto en portadores asintomáticos como en pacientes sintomáticos^{1,3,7}.

Por otro lado, es importante considerar que se reporta seronegatividad hasta en un 20% de los casos con hidatidosis hepática, así como persistencia de seropositividad hasta 10 años después del tratamiento de la enfermedad, por lo que no existe evidencia consistente que avale el uso rutinario de estas pruebas en localizaciones atípicas^{7,8}.

La ecografía (US) es la imagen de primera línea preferida con una sensibilidad 93-98%, permite identificar la membrana del quiste, tabiques y la arena hidatídica dentro del quiste⁸, pero la TC y RM, brindan más información sobre la morfología, ubicación, tamaño, vecindad y número de quistes, reportando ambas una sensibilidad del 90-100%. Un estudio retrospectivo de hidatidosis, principalmente en el hígado, compararon el uso de US, TC y RM, concluyendo que el US es el principal método diagnóstico, pero si la ubicación del quiste no permite una adecuada visualización, se debe seleccionar la RM sobre TC¹⁰.

Una vez realizado el diagnóstico, es obligatorio excluir otras localizaciones de la hidatidosis, especialmente la hidatidosis pulmonar, ya que su tratamiento tiene prioridad antes de cualquier intervención quirúrgica en otra localización anatómica⁵.

Los diagnósticos diferenciales de los quistes hidatídicos pélvicos incluyen quistes ováricos simples o complicados, tumores ováricos quísticos o mixtos (quistes dermoides), tumores retroperitoneales, abscesos piógenos o tuberculosos, hidrosalpinx, miomas uterinos, tumores como osteosarcoma, condrosarcoma y metástasis, entre otros¹¹⁻¹³.

El tratamiento de elección de la hidatidosis pélvica es quirúrgico. La resección en bloque es lo óptimo, se debe aislar la cavidad con compresas empapadas en povidona para prevenir una eventual siembra hidatídica⁵. La terapia preoperatoria con albendazol reduce la presión intraquística, mientras que la posoperatoria disminuye el riesgo de recurrencia, el tratamiento médico exclusivo se limita a un éxito del 40%^{2,13}. Después de una cirugía exitosa,

la tasa de recurrencia es de 2-10%, con tasas de sobrevida a 5 años del 95%⁵.

En nuestro caso se decidió asociar el tratamiento quirúrgico con resección en bloque del quiste más albendazol como tratamiento farmacológico en el posoperatorio.

Conclusión

La hidatidosis pélvica, a pesar de ser una localización excepcional, debe ser considerada en los diagnósticos diferenciales de lesiones quísticas de la pelvis, sobre todo en países endémicos como Chile. El estudio con imágenes es esencial y el tratamiento de elección es quirúrgico.

Aprobación ética. El estudio fue aprobado por el Comité Ético Científico del Servicio de Salud de la Araucanía Sur, acreditado por la Autoridad Sanitaria según Resolución N° J1-29658 del 07 de noviembre de 2017 y Resolución Exenta N° 15871 del 23 de diciembre de 2020.

Consentimiento para participar: Se obtuvo el consentimiento informado del paciente

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflictos de interés: Ninguno.

Financiamiento: Ninguno.

Rol

Fatme Díaz: Concepción, diseño, obtención de datos, redacción y aprobación final.

Juan Andrés Mansilla: Concepción y diseño, aporte de paciente, aprobación final.

Nelson Muñoz: Aporte de paciente, revisión critica, aprobación final.

Bibliografía

- Ministerio de Salud. Departamento de Enfermedades Transmisibles. Informe Situación de la Equinococosis quística/ Hidatidosis en Chile 2015-2019.
- Ghafouri M, Khorasani EY, Shokri A. Primary pelvic hydatid cyst in an infertile female, A case report. Clinical case reports 2020;8(9):1769-73. https://doi. org/10.1002/ccr3.3034
- Armiñanzas C, Gutiérrez-Cuadra M, Fariñas MC.Hidatidosis: aspectos epidemiológicos, clínicos, diagnósticos y terapéuticos. Rev Esp Quimioter . 2015;28(3):116-24.
- He J, Yang C, Wang W. Treatment of retroperitoneal echinococcosis: the experience of a single center. Medicine (Baltimore) 2021;100(8):e24744. https:// doi.org/jj4k.
- 4. Reyna E, Torres-Cepeda D, Rondon-Tapia

- M. Hidatidosis pélvica primaria. Rev Obstet Ginecol Venez. 2023;83(1):118-23. https://doi.org/10.51288/00830115
- Sharma G, Shreshtha S, Bhatt S, Garg P. Retroperitoneal cystic mass: a diagnostic challenge. ANZ J Surg. 2019;89(12):576-7. https://doi.org/jj4q.
- Mihmanli M, Idiz UO, Kaya C, Demir U, Bostanci O, Omeroglu S, et al. Current status of diagnosis and treatment of hepatic echinococcosis. World J Hepatol.

CASOS CLÍNICOS

7. Cattaneo L, Manciulli T, Cretu CM, Giordani MT, Angheben A, Bartoloni A, et al. Cystic Echinococcosis of the Bone:

2016;8(28):1169-81. https://doi.org/jj4v

- et al. Cystic Echinococcosis of the Bone: A European Multicenter Study. Am J Trop Med Hyg. 2019;100(3):617-21. https:// doi.org/jj4p.
- Tas EE, Yegin Akcay GF, Yildirim F, Yavuz F. Coexisting primary ovarian and omental hydatid disease mimicking an ovarian neoplasm: A case report. Int J Gynecol Pathol. 2018;37(3):301-304.
- doi: 10.1097/PGP.00000000000000411.
- Stojkovic M, Rosenberger K, Kauczor HU, Junghanss T, Hosch W. Diagnosing and staging of cystic echinococcosis: how do CT and MRI perform in comparison to ultrasound? Plos Negl Trop Dis. 2012;6(10):e1880. https://doi.org/jj4w. https://www.savalnet.cl/revistas/neumo_ ped_marzo_2013/files/assets/common/ downloads/ NEUMOLOG.pdf.
- Ben I, Zenaidi H, Rebii S, Zoghlami A.
 Primary hydatic cyst of the fallopian tube.

- IDCases. 2020;20:e00790. Doi: 10.1016/j. idcr.2020.e00790.
- Bhatnagar N, Kishan H, Sura S, Lingaiah P, Jaikumar K. Pelvic hydatid disease: A case report and review of literature. J Orthop Case Rep. 2017;7(4):25-8. Doi: 10.13107/jocr.2250-0685.834.
- 12. Nazari F, Muraveji Q, Baset G. Primary left ovarian hydatid cyst presenting as an abdominal mass Case report.

 Int J Surg Case Rep. 2021;85:106230.

 Doi: 10.1016/j.ijscr.2021.106230.