

## REPORTE DE CASO

### ***Struma ovarii* asociado a elevación de CA-125 y síndrome de pseudo-Meigs: reporte de caso y revisión de la literatura**

### **Struma ovarii associated with elevated CA-125 and pseudo-Meigs syndrome: case report and review of the literature**

Julián Yáñez-Hartmann<sup>1</sup>, Angelica María Duque-Leal<sup>1</sup>, Omar Alexis Gómez-Rodríguez<sup>2</sup>, Dianny Katerine Becerra-Gáfaró<sup>3</sup>

<sup>1</sup> IPS Oncofem, Cúcuta, Colombia.

<sup>2</sup> Unidad Hemato-Oncológica Especializada I.P.S. S.A.S., Cúcuta, Colombia.

<sup>3</sup> Residente de la Especialidad en Obstetricia y Ginecología, convenio Universidad Nacional de Colombia - Instituto Nacional de Cancerología, Bogotá, D. C., Colombia.

Fecha de sometimiento: 07/05/2023

Fecha de aceptación: 21/12/2023

Disponible en internet: 27/03/2024

#### Citación

Yáñez-Hartmann J, Duque-Leal A, Gómez-Rodríguez O, Becerra-Gáfaró D. *Struma ovarii* asociado a elevación de CA-125 y síndrome de pseudo-Meigs: reporte de caso y revisión de la literatura. Rev Col Cancerol. 2024;28(1):69-74. <https://doi.org/10.35509/01239015.969>

#### Conflictos de interés

Los autores declaran no presentar conflictos de interés.

#### Correspondencia

Julián Yáñez Hartmann  
IPS Oncofem, Cúcuta, Colombia

#### Correo electrónico:

[jyhartmann@gmail.com](mailto:jyhartmann@gmail.com)

#### Abstract

*Struma ovarii* is a mature monodermal ovarian teratoma derived from a germ cell type of low incidence, representing 5% of mature teratomas. In most cases, it is asymptomatic, although sometimes it tends to debut with abdominal involvement. We report the case of a patient with a pelvic mass accompanied by ascites, elevated CA-125, and pleural effusion, which reversed after surgery, constituting pseudo-Meigs syndrome. In addition, a systematic literature review was conducted on the subject to highlight the importance of including *struma ovarii* among the differential diagnoses in these types of patients.

**Keywords:** *struma ovarii*; Meigs syndrome; ovarian neoplasms; teratoma; ovary; ascites; pleural effusion; review.

#### Resumen

El *struma ovarii* es un teratoma ovárico, maduro y monodérmico que es derivado de un tipo de célula germinal de baja incidencia, el cual representa el 5% de los teratomas maduros y que en la gran mayoría de casos cursa de manera asintomática, aunque a veces tiende a debutar con compromiso abdominal. Se realizó el reporte de una paciente con masa pélvica, acompañada de ascitis, elevación de CA-125 y derrame pleural, los cuales se revirtieron tras la intervención quirúrgica, constituyendo el síndrome de pseudo-Meigs. Además, sobre este tema se hizo una revisión narrativa de la literatura para resaltar la importancia de reportar al *struma ovarii* entre los diagnósticos diferenciales en este tipo de pacientes.

**Palabras clave:** estruma ovárico; síndrome de Meigs; neoplasias ováricas; teratoma; ovario; ascitis; derrame pleural; revisión.

## Introducción

El *struma ovarii* es un teratoma ovárico maduro descrito desde 1889 por Boettlin (1), compuesto mayormente por tejido tiroideo (2), que deriva de un tipo de célula germinal que representa el 5% de los teratomas y el 0,3-1,0% de los tumores ováricos (3), y que suele comportarse de forma benigna, aunque un 5% se torna maligno (4).

El *struma ovarii* es clasificado como tumor ovárico cuando está constituido en un 50% por tejido tiroideo (5); su asociación con ascitis, derrame pleural y elevación de CA-125 es muy infrecuente (6), incluso, esta última solo se describe en el 30% de los casos. En ocasiones y por sus características clínicas e imagenológicas, este teratoma puede confundirse con cáncer de ovario epitelial, lo que conlleva a un enfoque terapéutico diferente (7). Es importante destacar que posterior a la resección de la lesión anexial, se ha observado la resolución de la ascitis y del derrame pleural, constituyendo un pseudo síndrome de Meigs (8). Así, tener esta asociación presente entre los diagnósticos diferenciales permitiría brindarles a las pacientes un manejo oncológico adecuado.

Se debe tener en cuenta que desde su descripción, este teratoma ha sido un reto diagnóstico preoperatoriamente (9-10), debido a sus diversas formas de manifestación. Usualmente, el *struma ovarii* es asintomático y su hallazgo es incidental (11), donde su presentación usual es una masa pélvica y solo el 5% desarrolla hipertiroidismo (12), el 15% tiende a asociarse con ascitis (13) y muy infrecuentemente a pseudo síndrome de Meigs (14), encontrándose muy pocos reportes de estos últimos casos a nivel mundial e inexistentes hasta la fecha a nivel nacional en Colombia.

## Metodología

Se realizó la recolección de información a partir del estudio de la historia clínica, los paraclínicos y las imágenes diagnósticas con el consentimiento informado de una paciente con estudio histopatológico de tumor ovárico y posterior biopsia. Adicionalmente, se llevó a cabo una revisión narrativa de la literatura por consulta en la base de datos de Pubmed/Medline, empleando los términos MeSH: “Struma ovarii” y “pseudo meigs syndrome”, obteniendo inicialmente 27 artículos, de los cuales se excluyeron 11 por no contar con las variables de ascitis, derrame pleural y elevación de CA-125, por lo que quedaron 16 reportes de casos clínicos de interés (tabla 1).

**Tabla 1.** *Struma ovarii* asociado con pseudo-Meigs y elevación de CA-125

Autores	Año de publicación	Edad de diagnóstico	Menopausia	Síntomas	Derrame pleural	Ascitis (litros)	Tamaño del tumor (cm)	CA-125 (U/ml)	Perfil tiroideo	Tratamiento
Bethune et al. (5)	1996	62	Post	Disnea	Marcado	Poca	9 × 5 × 5	1621	Normal	HT + SOB
Huh et al. (15)	2002	65	Post	Disnea	Moderado	6	5 × 4 × 4	402	Hipotiroidismo	HT + SOB + O
Loizzi et al. (16)	2005	65	Post	Disnea y dolor abdominal	Marcado	Poca	7 × 7	161	Hipertiroidismo	SOD
Obeidat y Amarin (12)	2007	52	Post	Disnea y distensión abdominal	Moderado	4	10 × 15 × 8	149	Normal	HT + SOB + O
Uehara y Sawada (17)	2007	67	Post	Disnea y distensión abdominal	Moderado	Masiva	7	2086	Normal	HT + SOB
Mitrou et al. (18)	2008	55	Post	Gran masa pélvica	Pequeño	8	22 × 23 × 10	3803	Hipotiroidismo	HT + SOB + O
Rana et al. (14)	2009	70	Post	Distensión abdominal	Marcado	Poca	7,5 × 5,5 × 4	284	Normal	HT + SOB
Jiang et al. (9)	2010	46	Pre	Distensión abdominal	Marcado	8	20 × 18 × 15	1230,9	Normal	HT + SOB
Mostaghel et al. (10)	2012	72	Post	Disnea y masa abdominal	Masivo	0,7	12 × 9,5	607	Normal	HT + SOB

Autores	Año de publicación	Edad de diagnóstico	Menopausia	Síntomas	Derrame pleural	Ascitis (litros)	Tamaño del tumor (cm)	CA-125 (U/ml)	Perfil tiroideo	Tratamiento
Cordón et al. (19)	2013	60	Post	Derrame pleural recurrente	Marcado	0,7	8 × 5	280	Normal	SOB
Anastasilakis et al. (20)	2013	49	SD	Masa abdominal	Marcado	Moderada	18 × 12 × 10	404	Hipertiroidismo	HT + SOB
Jin et al. (21)	2015	52	Pre	Disnea	Marcado	1	7 × 5	1289	Normal	HT + SOB
Fujiwara et al. (13)	2018	50	Post	Distensión abdominal y disnea	Pequeño	3,3	10 × 8 × 7	1237	Normal	HT + SOB
Morales et al. (22)	2018	72	Post	Disnea	Marcado	4	10 × 8 × 8	2639	Hipertiroidismo	SOD
Liu et al. (11)	2022	37	Pre	Masa abdominal	Marcado	3	20 × 10 × 5	1492,2	Normal	SOB
Wang et al. (23)	2022	45	Peri	Distensión abdominal	Pequeño	2	6 × 5 × 5	711,5	Normal	HT + SOB

HT: histerectomía total; O: omentectomía; SD: sin dato; SOB: salpingooforectomía bilateral; SOD: salpingooforectomía derecha

## Descripción del caso clínico

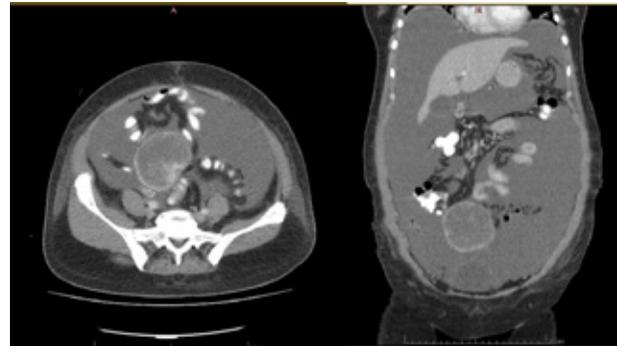
Paciente de 49 años de edad con antecedentes de hipertensión arterial controlada, menarquia a los 12 años, con ciclos menstruales regulares de 28 × 7 días, G2P2V2 y en estado perimenopáusico, quien consultó al servicio de urgencias por cuadro clínico de cuatro días de evolución, caracterizado por dolor y distensión abdominal marcada.

Al examen físico, la paciente presentaba abdomen distendido con onda ascítica presente y una masa palpable en fosa ilíaca derecha, por lo cual se solicitó ecografía, radiografía de tórax, hemograma, PCR y prueba de CA-125.

En la radiografía de tórax se evidenció un derrame pleural derecho y el ultrasonido documentó ascitis con masa anexial derecha sólida de 85 × 70 × 77 mm, el resultado de CA-125 fue mayor a 500 U/ml, además, se calculó el índice del *ADNEX risk model*, el cual indicó una alta probabilidad de riesgo de malignidad, por lo cual se solicitó una tomografía de abdomen para descartar compromiso secundario en esta región.

En la tomografía se observó una formación redondeada sólida de bordes bien definidos que captó anularmente el medio de contraste, de paredes engrosadas y localizada en la topografía del ovario derecho, con medidas de 80 × 70 mm, con septos en su interior, útero lateralizado a la

derecha y ascitis, adicionalmente no se observó compromiso ganglionar ni lesiones metastásicas y se informó de una sospecha imagenológica de teratoma quístico (figura 1).

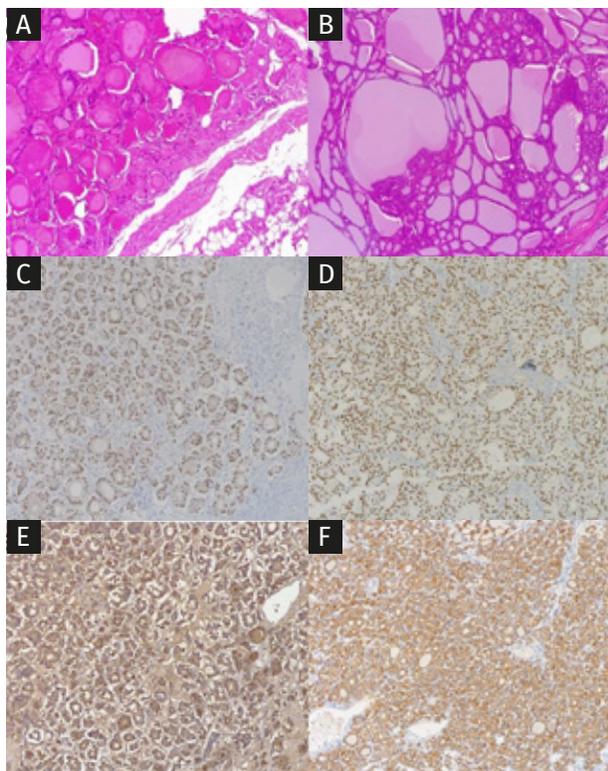


**Figura 1.** Tomografía axial computarizada de abdomen con corte sagital y coronario, abundante ascitis y masa redondeada con bordes regulares y septos en su interior

Entre los hallazgos intraquirúrgicos se evidenció ascitis serosa de 5000 cc, de la cual se tomó muestra para estudio y una gran lesión tumoral anexial derecha de 12 × 10 × 10 cm con adherencias al apéndice; se observaron útero y anexo izquierdo sin alteraciones, ganglios pélvicos y retroperitoneales sin compromiso y se realizó salpingooforectomía bilateral más histerectomía total, apendicectomía y omentectomía supracólica sin complicaciones.

La paciente presentó una adecuada evolución posoperatoria, con resolución de la ascitis y del derrame pleural, la citología de líquido ascítico fue negativa para malignidad, por lo que dados los hallazgos intraoperatorios se comenzó a validar sobre un posible síndrome de pseudo-Meigs.

La valoración anatomopatológica evidenció que las estructuras histológicas del área sólida del tumor correspondían a una proliferación neoplásica, compuestas por células con citoplasma claro a eosinofílico, formando macro y microfoliculos de tamaño variable cargados de material coloide, algunos densamente empaquetados, dispuestos sobre un estroma edematoso y consistentes con un *struma* quístico benigno del ovario (figura 2).



La tinción con hematoxilina-eosina mostró folículos tiroideos, formando estructuras macro y microfoliculares, revestidas por una sola capa de células epiteliales cúbicas con núcleos blandos uniformes y citoplasma eosinofílico (A y B). Las células tumorales muestran una positividad difusa en los núcleos para PAX8 (C) y TTF-1 (D) con tinción citoplasmática para tiroglobulina (E) y CK7 (F).

**Figura 2.** Estudio histopatológico de tumor ovárico derecho

Debido a la relación con alteraciones tiroideas, se solicitó ecografía y perfil tiroideo, el cual se encontró dentro de parámetros normales, mientras que en la ecografía se halló una imagen nodular sólida con una pequeña área quística de contorno definido de 15 × 14 × 8 mm, con leve vascularización al Doppler, por lo cual se realizó una biopsia por aspiración con aguja fina (Bacaf) que reportó atipias de células foliculares de significado indeterminado y fueron de categoría 3 de Bethesda. Durante el seguimiento de seis meses, la paciente presentó una evolución clínica adecuada, sin evidencia de recaída.

## Discusión

En los artículos seleccionados para la revisión narrativa, los principales motivos de consulta al servicio de urgencias fueron: distensión abdominal, disnea y edad media de presentación y diagnóstico de 56 años, esto último acorde a lo descrito en la literatura que reporta el pico de incidencia de *struma ovarii* entre los 50 y los 60 años de vida (18).

En el caso que aquí se reporta, se presentó ascitis con líquido seroso, donde el mecanismo por el cual se produjo no está del todo establecido, sin embargo, se consideró que pudo ser secundario a una obstrucción linfática ocasionada por el tumor, que además, debido a su volumen, causó irritación del peritoneo, lo cual conllevó a la liberación de toxinas y productos inflamatorios, lo que resultó en un exudado (22); adicionalmente, se planteó la hipótesis de que la ascitis pasó a través del diafragma y de este modo se formó el derrame pleural (8, 21).

Se debe tener en cuenta que el CA-125 es un marcador tumoral que orienta al diagnóstico de cáncer de ovario, pero que es poco específico y que se puede elevar en condiciones benignas (20); sus valores son tan variados que aún no es posible definir un rango para diferenciar entre patología maligna o benigna. El *struma ovarii* es producido por las células mesoteliales (15) como respuesta a la irritación mecánica e inflamatoria tumoral (21, 23); la elevación del marcador CA-125 solo se ha descrito en el 30% de los casos y no se ha asociado con un peor pronóstico (23).

Imagenológicamente representa un reto diagnóstico, donde en ultrasonidos se muestra como una masa que puede presentar hipervascularización y calcificaciones, pero cuando se realiza tomografía axial, se evidencian

lesiones quísticas con septos de alta atenuación y en más de la mitad de los casos se ven calcificaciones a lo largo de los tabiques engrosados (11, 13), mientras que en la resonancia magnética puede observarse hipercaptación en T2, pero todos estos son signos no excluyentes de malignidad.

En su reporte, Fujiwara *et al.* (13) plantearon que la tomografía por emisión de positrones/tomografía computarizada combinada con gammagrafía tiroidea puede ser de gran utilidad, ya que al no tener captación de fluorodesoxiglucosa se orienta al *struma ovarii* y al obtener una gammagrafía tiroidea dentro de la normalidad se descarta la malignidad, por lo cual, la intervención quirúrgica se puede realizar de manera conservadora.

Ante una paciente perimenopáusica con distensión abdominal, ascitis, derrame pleural, niveles de antígeno CA-125 elevados y las características imagenológicas descritas, la probabilidad de malignidad aumentó (13, 16, 19) y se llevaron a cabo procedimientos quirúrgicos extensos, con la finalidad de realizar una adecuada resección y disminuir el riesgo de recidiva, tal como también se pudo constatar este tipo de procesos en 12 de los 16 casos revisados, donde los 4 restantes estuvieron asociados a que intraoperatoriamente se realizó una biopsia por congelación (17) o una biopsia percutánea (22), lo que descartó la malignidad de los tumores y el caso previamente descrito de Fujiwara *et al.* (13), donde se utilizaron más recursos peroperatorios.

Tras la intervención y en el 100% de los casos, las pacientes presentaron una evolución clínica satisfactoria y sin reportes de recaídas.

### Aspectos éticos y confidencialidad de los datos

Al ser una revisión de historia clínica, el presente trabajo se clasificó en la categoría de investigación sin riesgo, según la Resolución N.º 8430 de 1993 del Ministerio de Salud de Colombia; para la divulgación de datos e imágenes complementarias, se llevó a cabo la firma del consentimiento informado por parte de la paciente, el cual se encuentra en poder del autor de correspondencia. Aunque en este documento se mencionan los datos clínicos de la paciente, no se exponen datos personales que permitan su identificación.

## Conclusión

El *struma ovarii* es un tumor de baja de frecuencia que, al presentarse asociado a ascitis y derrame pleural, se plantea como un reto diagnóstico para el personal médico, lo cual se incrementa al asociarse a una elevación de CA-125, que suele verse en el 30% de los casos. Por eso, es importante que ante el abordaje de una masa anexial unilateral, de componente sólido/quístico, se tenga presente esta entidad como diagnóstico diferencial, lo cual refuerza la necesidad de identificar y establecer criterios y ayudas diagnósticas más específicas que permitan un adecuado discernimiento.

## Referencias

1. Nieminen U, von Numers C, Widholm O. Struma ovarii. Acta Obst Gynec Scand. 1964;42:399-424. <https://doi.org/10.3109/00016346409158158>
2. Devaney K, Snyder R, Morris H, Tavassoli F. Proliferative and histologically malignant struma ovarii. A clinicopathologic study of 54 cases. Int J Gynecol Pathol. 1993;12:333-43. <https://doi.org/10.1097/00004347-199310000-00008>
3. Oudoux A, Leblanc E, Beaujot J, Gauthier-Kolesnikov H. Treatment and follow-up of malignant struma ovarii: regarding two cases. Gynecol Oncol Rep. 2016;17:56-9. <https://doi.org/10.1016/j.gore.2016.05.014>
4. Rosenblum N, LiVolsi V, Edmonds P, Mikuta J. Malignant struma ovarii. Gynecol Oncol. 1989;32(2):224-7. [https://doi.org/10.1016/S0090-8258\(89\)80037-X](https://doi.org/10.1016/S0090-8258(89)80037-X)
5. Bethune M, Quinn M, Rome R. Struma ovarii presenting as acute pseudo-Meigs syndrome with an elevated CA 125 level. Aust NZ J Obstet Gynaecol. 1996;36(3):372-3. <https://doi.org/10.1111/j.1479-828x.1996.tb02734.x>
6. Amr S, Hassan A. Struma ovarii with pseudo-Meigs' syndrome. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol. 1994;55:205-8. [https://doi.org/10.1016/0028-2243\(94\)90039-6](https://doi.org/10.1016/0028-2243(94)90039-6)
7. Yadav S, Tomar R, Verma N, Khurana N, Triathi R. Struma ovarii with pseudo-Meigs' syndrome and raised cancer antigen-125 levels masquerading as an ovarian carcinoma: case report and literature review. Sultan Qaboos Univ Med J. 2017;17(2):e229-33. <https://doi.org/10.18295/squmj.2016.17.02.017>
8. Amant F, Gabriel C, Timmerman D, Vergote I. Pseudo-Meigs' syndrome caused by a hydropic degenerating uterine leiomyoma with elevated CA 125. Gynecol Oncol. 2001;83:153-7. <https://doi.org/10.1006/gyno.2001.6251>
9. Jiang W, Lu Z, Ling Z, Shi X, Jian C. Struma ovarii associated with pseudo-Meigs' syndrome and elevated serum CA 125: a case report and review of the literature. J Ovarian Res. 2010;3:18. <https://doi.org/10.1186/1757-2215-3-18>
10. Mostaghel N, Enzevaei A, Zare K, Fallahian M. Struma ovarii associated with Pseudo-Meig's syndrome and high serum level of CA 125, a case report. J Ovarian Res. 2012;5:10. <https://doi.org/10.1186/1757-2215-5-10>

11. Liu Y, Tang G-Y, Liu L, Sun H-M, Zhu H-Y. Giant struma ovarii with pseudo-Meigs' syndrome and raised cancer antigen-125 levels: a case report. *World J Clin Cases*. 2022;10(30):11155-61. <https://doi.org/10.12998/wjcc.v10.i30.11155>
12. Obeidat B, Amarin Z. Struma ovarii with pseudo-Meigs' syndrome and elevated CA125 levels. *J Obstet Gynaecol*. 2007;27(1):97-8. <https://doi.org/10.1080/01443610601076267>
13. Fujiwara S, Tsuyoshi H, Nisginura T, Takahashi N, Yoshida Y. Precise preoperative diagnosis of struma ovarii with pseudo-Meigs' syndrome mimicking ovarian cancer with the combination of 131I scintigraphy and 18F-FDG PET: case report and review of the literature. *J Ovarian Res*. 2018:11-11. <https://doi.org/10.1186/s13048-018-0383-2>
14. Rana V, Srinivas V, Bandyopadhyay S, Ghosh S, Singh Y. Bilateral benign nonfunctional struma ovarii with Pseudo-Meigs' syndrome. *Indian J Pathol Microbiol*. 2009;52(1):94-6. PMID: 19136795.
15. Huh J, Montz F, Bristow R. Struma ovarii associated with pseudo-Meigs' syndrom and elevated serum CA 125. *Gynecol Oncol*. 2002;86:231-4. <https://doi.org/10.1006/gyno.2002.6741>
16. Loizzi V, Cormio G, Resta L, Fattizzi N, Vicino M, Selvaggi L. Pseudo-Meigs syndrome and elevated CA125 associated with struma ovarii. *Gynecol Oncol*. 2005;97(1):282-4. <https://doi.org/10.1016/j.ygyno.2004.12.040>
17. Uehara T, Sawada M. Struma ovarii associated with Meigs syndrome. *Jpn J Clin Oncol*. 2007;37(1):73. <https://doi.org/10.1093/jjco/hyl159>
18. Mitrou S, Manek S, Kehoe S. Cystic struma ovarii presenting as pseudo-Meigs' syndrome with elevated CA125 levels. A case report and review of the literature. *Int J Gynecol Cancer*. 2008;18:372-5. <https://doi.org/10.1111/j.1525-1438.2007.00998.x>
19. Córdón J, Pinal I, Willekens R, Arderiu M. Derrame pleural recidivante y marcada elevación de CA-125 en una paciente con un seudosíndrome de Meigs secundario a un estruma de ovario. *Med Clín*. 2013;140(5):237. <http://dx.doi.org/10.1016/j.medcli.2012.07.004>
20. Anastasilakis A, Ruggeri R-M, Polyzos S, Makras P, Molyva D, Campenni A, *et al*. Coexistence of Graves' disease, papillary thyroid carcinoma and unilateral benign struma ovarii: case report and review of the literature. *Metabolism*. 2013;62(10):1350-6. <https://doi.org/10.1016/j.metabol.2013.05.013>
21. Jin C, Dong R, Bu H, Yuan M, Zhang Y, Kong B. Coexistence of benign struma ovarii, pseudo-Meigs' syndrome and elevated serum CA 125: case report and review of the literature. *Oncol Lett*. 2015;9(4):1739-42. <https://doi.org/10.3892/ol.2015.2927>
22. Morales A, Araiza J, Alvarez T, Medrano R, Barbosa J, Tolentino M. Struma ovarii associated with Pseudo-Meigs syndrome and elevated serum CA 125: case report and literature review. *Int J Reprod Contracept Obstet Gynecol*. 2018;7(1):336-41. <https://doi.org/10.18203/2320-1770.ijrcog20175490>
23. Wang S, He X, Yang H, Chen L. Struma ovarii associated with ascites and elevated CA125: two case reports and review of the literature. *Int J Womens Health*. 2022;14:1291-6. <https://doi.org/10.2147/IJWH.S379128>