

Embolización preoperatoria de teratoma sacrococcígeo gigante en un recién nacido. Reporte de un caso y revisión

J. Guitart, M. Teixidor, N. Brun, S. López, E. Criado, N. Romero

Corporació Sanitària i Universitària Parc Taulí. Sabadell. Barcelona.

RESUMEN

El teratoma sacrococcígeo (TSC) es el tumor congénito de células germinales más frecuente. Los pacientes afectados tienen un mayor riesgo de complicaciones perinatales y muerte, siendo la hemorragia y la descompensación cardíaca las causas más comunes de mortalidad neonatal.

Presentamos el caso de un recién nacido pretérmino de 35 semanas con un TSC de gran tamaño diagnosticado por ecografía en el segundo trimestre. La embolización selectiva preoperatoria de la arteria sacra media y la resección quirúrgica total postnatal se realizaron con una mínima pérdida de sangre. El paciente fue dado de alta a los 25 días de vida con un examen físico normal.

La embolización selectiva antes de la cirugía de resección del TSC gigante es factible y aparece como una técnica segura y útil en el control del sangrado perioperatorio.

PALABRAS CLAVE: Teratoma sacrococcígeo; Recién nacido prematuro; Embolización; Arteria sacra media; Embolización prequirúrgica.

PREOPERATIVE GIANT SACROCOCYGEAL TERATOMA EMBOLIZATION IN A NEWBORN – A CASE REPORT AND A REVIEW

ABSTRACT

Sacrocoxygeal teratoma (SCT) is the most frequent congenital germ cell tumor. Patients have a higher risk of perinatal complications and death, with bleeding and cardiac decompensation being the most common causes of neonatal mortality.

This is the case of a 35-week preterm newborn with a large SCT diagnosed at ultrasound screening in the second trimester. Preoperative selective embolization of the middle sacral artery and total surgical resection were performed postnatally with minimal blood loss. The patient was discharged at 25 days of life with a normal physical examination.

Selective embolization prior to giant SCT resection is feasible and appears as a safe and useful technique in the control of perioperative bleeding.

KEY WORDS: Sacrocoxygeal teratoma; Preterm newborn; Embolization; Middle sacral artery; Preoperative embolization.

INTRODUCCIÓN

El teratoma sacrococcígeo (TSC) es el tumor de células germinales más frecuente en la edad pediátrica y la neoplasia fetal reconocible más frecuente⁽¹⁾. Normalmente se diagnostica durante la ecografía de control prenatal como una masa intrauterina. Las lesiones de más de 10 cm están asociadas con una alta mortalidad perinatal, especialmente si son hipervasculares, debido a una posible hemorragia intraoperatoria o complicaciones por insuficiencia cardíaca congestiva. Estos tumores normalmente son irrigados por una arteria sacra media hipertrófica, por lo que su ligadura o control es un paso clave en la intervención quirúrgica. Una búsqueda exhaustiva de la literatura mostró solo tres casos descritos sobre embolización prequirúrgica del TSC⁽²⁻⁴⁾. Presentamos un caso de un TSC gigante tipo 1 en un paciente de 35 semanas de edad gestacional que fue embolizado con éxito antes de la exéresis quirúrgica. El objetivo de este artículo es describir el procedimiento endovascular y discutir sus beneficios y riesgos.

CASO CLÍNICO

Recién nacido prematuro de 35 semanas diagnosticado prenatalmente de un TSC gigante. La ecografía del segundo trimestre y la posterior resonancia magnética fetal realizada en la semana 29 de gestación confirmaron un TSC tipo 1 según la clasificación de Altman. No se observaron signos de insuficiencia cardíaca durante los ecocardiogramas fetales posteriores. Se realizó una cesárea urgente debido a una ruptura prematura de las membranas y anomalías en el registro

Correspondencia: Dr. Josep Guitart Giménez. Parc del Taulí, 1. 08208 Sabadell (Barcelona).

E-mail: jguitartg@gmail.com

Recibido: Octubre 2019

Aceptado: Enero 2020

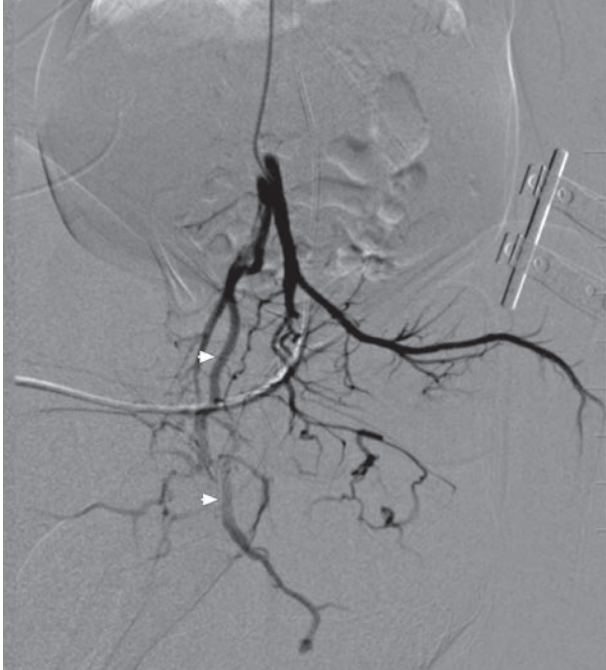


Figura 1. Hipertrofia de la arteria sacra media (puntas de flecha) con marcada neovascularización en el lecho tumoral.

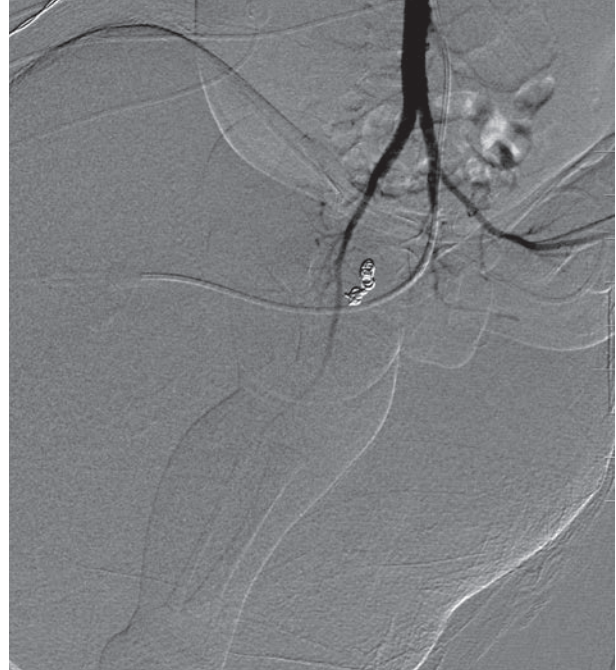


Figura 2. Angiografía aortoiliaca después de la embolización con Gelfoam® y *microcoils*.



Figura 3. Apariencia del tumor antes de la intervención (18 horas después de la embolización) que muestra signos de isquemia y necrosis.

cardiotocográfico asociado. Incluyendo el tumor, el peso del paciente era de 4.030 g en el momento del nacimiento. El TSC midió aproximadamente 19 × 15 cm y mostraba ulceraciones y signos de sangrado en su superficie.

Se realizó ecocardiografía a las 24 h de vida que mostró ductus arterioso persistente de 3 mm con comunicación izquierda-derecha (normal para las horas desde nacimiento) sin otras alteraciones relevantes (fracción de eyección del 73%).

Debido a su tamaño y ulceraciones, se indicó la exéresis quirúrgica electiva a las 24 horas. Con el objetivo de controlar

la irrigación del tumor a través de la arteria sacra media, se decidió igualmente intentar la embolización preoperatoria bajo anestesia general 18 horas después del parto.

Debido a que el abordaje por arteria femoral común era imposible por la posición de las extremidades del paciente relacionada con el tamaño del tumor, se utilizó la arteria carótida común (ACC) izquierda previa exposición quirúrgica. A través de un introductor vascular de 4F y un catéter multipropósito 4F, se realizó una aortografía abdominal mediante inyección manual de contraste. A través del introductor, se administraron 250 UI de heparina. La angiografía de la aorta abdominal inferior mostró una gran masa hipervascularizada irrigada por una arteria sacra media marcadamente hipertrofica (Fig. 1) y, en menor grado, por algunas ramas sacras laterales de la arteria hipogástrica izquierda. La arteria sacra media se cateterizó selectivamente con un microcatéter 2.7F (Progreat®, Terumo Europa) y se embolizó con éxito con Gelfoam® (Pfizer, España) y dos *microcoils* empujables proximalmente (Fig. 2). La embolización se realizó con un total de 5 ml de contraste yodado diluido en 10 ml de suero fisiológico. Incluyendo la disección quirúrgica de la ACC izquierda, el tiempo total del procedimiento fue de 90 minutos. El paciente fue transferido a la UCI neonatal sin incidentes a resaltar. La intervención electiva se realizó al día siguiente, a las 38 horas de vida, a través de un acceso sacro posterior y con una mínima pérdida de sangre intraoperatoria, precisando la transfusión de 5 ml/kg de concentrado de hematíes, con hemoglobina final de 9,8 g/dl. Previo a la extirpación, el tumor mostraba un aspecto isquémico violáceo con áreas de necrosis (Fig. 3).

La anatomía patológica del tumor confirmó el diagnóstico de teratoma congénito inmaduro (diámetro máximo de 18 cm) y fragmento de coxis con elementos teratomatosos adyacentes (tejido pancreático). Fue dado de alta a los 25 días de vida con un examen físico normal.

DISCUSIÓN

El presente caso describe la embolización prequirúrgica de un TSC con éxito mediante un abordaje por arteria carótida común (ACC) izquierda. El acceso por ACC, ya sea mediante arteriotomía o, más recientemente, mediante un acceso percutáneo⁽⁵⁾ ya ha sido descrito en lactantes con cardiopatía congénita sometidos a un cateterismo cardiaco. Por otro lado, existe escasez de información sobre su uso para otro tipo de intervenciones vasculares. Hasta donde sabemos, solo hay tres casos publicados sobre TSC en los que el control hemostático prequirúrgico se haya realizado por vía endovascular y solamente en uno de ellos⁽³⁾ el abordaje fue por ACC.

Los TSC diagnosticados prenatalmente son difíciles de manejar debido a su naturaleza impredecible. La mortalidad perinatal varía del 40 al 50%⁽⁶⁾.

Las características de la imagen, en particular un volumen tumoral (> 10 cm), sobre todo asociado al componente sólido, puede proporcionar información pronóstica⁽⁶⁾. Otros factores asociados a SCT de alto riesgo incluyen polihidramnios y rápido crecimiento tumoral. La disfunción cardiaca fetal (a menudo asociada con hidrops no inmune), hemorragia tumoral espontánea y el parto prematuro también están fuertemente relacionados con mortalidad y morbilidad perinatal⁽⁷⁾.

El objetivo de las medidas de tratamiento intrauterino es reducir el impacto cardiovascular debido a la masa tumoral y permitir el crecimiento y la maduración fetales normales. En casos seleccionados de TSC de alto riesgo, puede estar indicada la cirugía fetal.

Se recomienda intervención prenatal por cirugía fetal abierta en fetos de alto riesgo y presencia de hidrops cuando aparecen en una edad gestacional temprana para el parto y la atención neonatal (generalmente entre la semana 28 a 32)⁽⁸⁾.

Otra opción para los padres puede ser la terminación del embarazo. Los TSC de bajo riesgo generalmente nacen mediante cesárea después de las 36 semanas de gestación. La insuficiencia cardiaca por alto gasto, la hemorragia tumoral interna y el sangrado perioperatorio son las causas más comunes de muerte prematura y están fuertemente asociadas al tamaño del tumor⁽⁹⁾.

El tratamiento definitivo es una resección tumoral completa, que generalmente incluye la extirpación del cóccix. La resección tumoral temprana se asocia con un mejor pronóstico. El abordaje quirúrgico depende del tamaño del tumor y la infiltración de las estructuras pélvicas. La resección quirúrgica puede ser compleja, con un alto riesgo de hemorragia tumoral incontrolable, inestabilidad hemodinámica y, en consecuencia, riesgo vital. La mortalidad por hemorragia de los recién

nacidos con TSC representa casi el 70% de la mortalidad general en el periodo neonatal. Para evitar este riesgo, es recomendable una buena disección quirúrgica, y puede ayudar la oclusión temprana de las arterias que alimentan al tumor.

La arteria sacra media normalmente irriga el TSC, y puede ser tan hipertrófica como la arteria ilíaca común. Esta gran hipertrofia puede causar un síndrome de robo vascular⁽¹⁰⁾. El tumor también puede ser alimentado por ambas ramas de la arteria ilíaca interna, principalmente por las arterias sacras laterales.

Hay pocos casos publicados en la literatura donde se describe la desvascularización tumoral previa a la exéresis del tumor mediante ligadura de la arteria sacra media, de las arterias ilíacas internas o el pinzamiento temporal de la aorta abdominal prebifurcación⁽¹¹⁾.

Hasta donde sabemos, solo hay 3 casos publicados en los que el control hemostático prequirúrgico se haya realizado por vía endovascular.

En 2006, Cowles y cols. publicaron un caso de un recién nacido de 36 semanas con un gran TSC tipo 1 que se sometió a embolización arterial y posterior ablación percutánea por radiofrecuencia directa del tumor con fines de control hemostático antes de la resección quirúrgica. En este paciente, el acceso vascular se realizó por arteria femoral común derecha. La arteria sacra media, las arterias sacras laterales y la arteria glútea fueron embolizadas con Gelfoam y pegamento acrílico⁽²⁾.

Posteriormente, Lahdes-Vasama y cols.⁽³⁾, en el 2011, y Rossi y cols.⁽⁴⁾, en 2013, describieron la desvascularización prequirúrgica de un TSC gigante solamente mediante un abordaje endovascular. En el primer caso se trataba de un recién nacido prematuro de 30 semanas y se decidió, como en nuestro caso, un acceso por arteria carótida común.

La posición de las extremidades inferiores en semi-abducción debido al tamaño del tumor nos obligó a descartar un abordaje femoral. Sin embargo, se pudo lograr un cateterismo más favorable de la arteria sacra media desde un abordaje supraaórtico. Desde nuestra corta experiencia, la selección correcta del acceso arterial es un punto clave, siendo el paso más exigente y con mayor repercusión en el tiempo del procedimiento. Por tanto, debe anticiparse y discutirse con el equipo quirúrgico. El pequeño tamaño del acceso arterial, una mayor propensión al espasmo arterial y el hecho de que el acceso femoral puede verse impedido por las características de la masa pélvica son las principales causas de estas dificultades en el acceso arterial.

El manejo de líquidos en el recién nacido prematuro es esencial y limita la cantidad de líquidos que pueden inyectarse durante la angiografía y la embolización, siendo este otro punto técnicamente importante.

En relación a las complicaciones, además de las secundarias a la punción (hematoma, pseudoaneurisma, etc.) y al cateterismo (disección, perforación, trombosis, embolia, etc.), existen complicaciones específicas para la localización anatómica que se está embolizando.

El síndrome postembolización, ampliamente descrito en la quimioembolización hepática y la embolización de miomas, más que una complicación es uno de los efectos secundarios más comunes de la embolización arterial. Comprende la tríada de dolor, fiebre y náuseas/vómitos, generalmente de carácter leve y autolimitado dentro de las primeras 72 horas.

La necrosis cutánea, de vejiga u otros órganos intraabdominales se ha descrito en embolizaciones realizadas en el territorio pélvico, así como el daño neurológico (paraparesia, neuropatía) o incluso la isquemia medular, si bien su incidencia es baja⁽¹²⁾.

En nuestro caso, y tampoco en los demás casos publicados en la literatura, no hubo ninguna complicación relacionada con la técnica ni con el territorio embolizado. La cirugía electiva inmediatamente después de la embolización arterial fue técnicamente exitosa y no se observó pérdida significativa de sangre.

En resumen, la embolización selectiva de la arteria sacra media antes de la resección quirúrgica de un TSC gigante es factible y parece una técnica segura y útil para controlar el sangrado perioperatorio y disminuir el riesgo de muerte neonatal.

BIBLIOGRAFÍA

1. Hassan HS, Elbatarny AM. Sacrococcygeal teratoma: management and outcomes. *Ann Pediatr Surg.* 2014; 10: 72-7.
2. Cowles RA, Stolar CJ, Kandel JJ, Weintraub JL, Susman J, Spigland NA. Preoperative angiography with embolization and radiofrequency ablation as novel adjuncts to safe surgical resection of a large, vascular sacrococcygeal teratoma. *Pediatr Surg Int.* 2006; 22: 554-6.
3. Lahdes-Vasama TT, Korhonen PH, Seppänen JM, Tammela OK, Iber T. Preoperative embolization of giant sacrococcygeal teratoma in a premature newborn. *J Pediatr Surg.* 2011; 46: e5-8.
4. Rossi U, Cariati M, Tomà P. Giant sacrococcygeal teratoma embolization. *Indian J Radiol Imaging.* 2013; 23: 145.
5. Justino H, Petit CJ. Percutaneous common carotid artery access for pediatric interventional cardiac catheterization. *Circ Cardiovasc Interv.* 2016; 9: e003003.
6. Akinkuotu AC, Coleman A, Shue E, Sheikh F, Hirose S, Lim FY, Olutoye OO. Predictors of poor prognosis in prenatally diagnosed sacrococcygeal teratoma: a multiinstitutional review. *J Pediatr Surg.* 2015; 50: 771-4.
7. Ayed A, Tonks AM, Lander A, Kilby MD. A review of pregnancies complicated by congenital sacrococcygeal teratoma in the West Midlands region over an 18-year period: population-based, cohort study. *Prenat Diagn.* 2015; 35: 1037-47.
8. Roybal JL, Moldenhauer JS, Khalek N, Bebbington MW, Johnson MP, Hedrick HL, et al. Early delivery as an alternative management strategy for selected high-risk fetal sacrococcygeal teratomas. *J Pediatr Surg.* 2011; 46: 1325-32.
9. Kremer ME, Wellens LM, Derikx JP, van Baren R, Heij HA, Wijnen MH, et al. Hemorrhage is the most common cause of neonatal mortality in patients with sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg.* 2016; 51: 1826-9.
10. Milner R, Adzick NS. Perinatal management of fetal malformations amenable to surgical correction. *Curr Opin Obstet Gynecol.* 1999; 11: 177-83.
11. Lukish JR, Powell DM. Laparoscopic ligation of the median sacral artery before resection of a sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg.* 2004; 39: 1288-90.
12. Bilbao JI, Martínez-Cuesta A, Urtasun F, Cosín O. Complications of embolization. *Semin Intervent Radiol.* 2006; 23: 126-42.