

Tumores retrorrectales. Análisis retrospectivo en un hospital de tercer nivel

Retrorectal tumors. Retrospective analysis in a third level hospital

Pablo PELÁEZ TORRES*^{ID}, Cristina NEVADO GARCÍA*^{ID}, Inés MARCOS CORTÉS*^{ID},
María LABALDE MARTÍNEZ*^{ID}, David ALÍAS JIMÉNEZ*^{ID}, Alfredo VIVAS LÓPEZ*^{ID},
Francisco Javier GARCÍA BORDA*^{ID}, Eduardo FERRERO HERRERO*^{ID}.

* Servicio de Cirugía General, Aparato Digestivo y Trasplante de Órganos Abdominales. Hospital Universitario 12 de Octubre. Madrid, España.

Autor de correspondencia:

Pablo Peláez Torres
ORCID n° 0000-0003-0503-6080.
Unidad de Cirugía Colorrectal,
Hospital universitario 12 de Octubre.
Avda. de Córdoba s/n.
28041 Madrid.
pablo.pelaez@salud.madrid.org

Recibido: 30-09-2024
Revisado: 02-10-2024
Aceptado: 04-10-2024
Publised: 13-12-2024

Descargo de responsabilidad/ Nota del editor:

Las declaraciones, opiniones y datos contenidos en todas las publicaciones pertenecen exclusivamente a los autores y colaboradores individuales y no a Dykinson S.L. ni a los editores. Dykinson S.L. y/o el(los) editor(es) declinan toda responsabilidad por cualquier daño a personas o propiedad que resulte de cualquier idea, método, instrucción o producto mencionado en el contenido.

Este artículo, se distribuye bajo licencia Creative Commons Interacional 4.0 No comercial - Sin obra derivada (CC BY-NC-ND 4.0)

© 2024. Los autores. Publicado por Archivos de Cirugía

Resumen

Introducción: las lesiones del espacio retrorrectal son una entidad rara de malformaciones congénitas con bajo riesgo de degeneración maligna. El objetivo del estudio es el análisis de las características lesionales en un hospital de tercer nivel. **Material y métodos:** estudio retrospectivo, descriptivo y unicéntrico entre los años 2011 y 2023. **Resultados:** con una incidencia de 1.6 casos anual, existe un predominio en mujeres con sintomatología a base de dolor anal como síntoma más frecuente. Las pruebas diagnósticas complementarias más usadas son la TAC y la RMN pélvica. La vía de abordaje más frecuente en nuestra serie es la vía posterior. **Conclusión:** los hamartomas quísticos (*tailgut*) son las estirpes más frecuentes. La vía de abordaje quirúrgico se debe considerar conforme a la localización de la lesión respecto del cuerpo de S3.

Palabras clave: tumor retrorrectal, abordaje posterior, hamartoma quístico.

Abstract

Introduction: retrorectal space lesions are a rare entity of congenital malformations with a low risk of malignant degeneration. The aim of the study is the analysis of the lesion characteristics in a third level hospital. **Material and methods:** retrospective, descriptive and single-center study between 2011 and 2023. **Results:** with an incidence of 1.6 cases per year, there is a predominance in women with symptoms based on anal pain as the most frequent symptom. The most commonly used complementary diagnostic tests are CT and pelvic MRI. The most frequent approach in our series is the posterior approach. **Conclusion:** cystic hamartomas (*tailgut*) are the most frequent specimens. The surgical approach should be considered according to the location of the lesion with respect to the body of S3.

Key Words: retrorectal tumor, posterior approach, cystic hamartoma.

Lista de abreviaturas:

HQR: hamartoma quístico retrorrectal.
TAC: Tomografía Axial Computerizada.
RMN: Resonancia Magnética Nuclear.
PAAF: Punción Aspiración con Aguja Fina.



Archivos de Cirugía
Volumen 2:14
© Los autores 2024

ISSN: 3020-2655

Tumores retrorrectales
Retrorectal tumors
P. PELÁEZ TORRES, C. NEVADO GARCÍA, I. MARCOS CORTÉS, M. LABALDE MARTÍNEZ, D. ALÍAS JIMÉNEZ,
A. VIVAS LÓPEZ, F. J. GARCÍA BORDA, E. FERRERO HERRERO
DOI: <https://www.doi.org/10.14679/3512>

Introducción y objetivos

Las lesiones del espacio retrorrectal son una entidad rara de malformaciones congénitas heterogéneas que se originan de remanentes embriológicos postnatales del intestino caudal. Afectan fundamentalmente a mujeres de mediana edad de forma asintomática, siendo su diagnóstico de manera incidental. No obstante, a pesar de tratarse de lesiones benignas existe riesgo de transformación maligna (7-10%).

El objetivo del presente artículo es analizar su incidencia, manejo y estirpes anatomopatológicas en un hospital de tercer nivel.

Material y métodos

Estudio retrospectivo, descriptivo y unicéntrico comprendido entre los años 2011 y 2023. Se analizan las variables correspondientes a género, edad, síntomas, pruebas diagnósticas, vía de abordaje quirúrgico y resultados anatomopatológicos.

Resultados

La **tabla 1** muestra las características de las 24 lesiones retrorrectales a estudio, 15 corresponden a mujeres y 9 a varones. Hasta un 16.7% son asintomáticos siendo las manifestaciones clínicas el dolor anal (41.7%), la supuración anal (16.7%) y otros síntomas (25%). El diagnóstico mediante prueba de imagen se realizó con TAC pélvico (58.3%) y RMN pélvica (41.7%). El tratamiento quirúrgico planteado es por vía posterior o laterosacra en el 75% de los casos. Los resultados anatomopatológicos más frecuentes corresponden a hamartoma quístico retrorrectal (58.3%), teratoma quístico (16.7%) y una variedad muy heterogénea en el resto (25%): cordoma, quiste mesotelial y quiste de duplicación.

Discusión

Los tumores retrorrectales constituyen una rara entidad en la población adulta (1/40.000 pacientes). La mayoría son congénitos, se desarrollan en el espacio retrorrectal y comprenden desde lesio-

nes quísticas benignas a masas complejas de etiología maligna.

En nuestro centro hospitalario que atiende a una población aproximada de unos 450.000 habitantes, supone una incidencia anual de 1.6% con un total de 24 lesiones retrorrectales obtenidas durante un periodo de estudio de 13 años (del 2011 al 2023). De estas la mayoría de lesiones corresponden a mujeres (62.5%) por encima de los 30 años (91.7%) sin otros antecedentes (8.3%) con historias de abscesos/fístulas de repetición, mientras que el 37.5% corresponden a varones.

Debemos entender el espacio retrorrectal o presacro como un espacio virtual cuyos límites son: **anterior** la fascia propia del recto u hoja visceral, **posterior** la fascia presacra u hoja parietal, **superior** la reflexión peritoneal, **inferior** la fascia de Waldeyer y **lateral** los uréteres y vasos ilíacos internos.

Cabe mencionar la controversia entre conceptos anatómicos como son la fascia de Waldeyer y la fascia rectosacra especialmente en la relación del límite inferior de este espacio. En 1899 William Waldeyer describió el suelo del espacio retrorrectal como la fusión posterior entre las hojas parietal y visceral de la fascia endopélvica por encima del ligamento anocóxigeo.

Los trabajos de García-Armengol et al¹ ponen de manifiesto la existencia de una fascia que nace de la fascia presacra (80% de varones y 100% de mujeres) y desciende caudal y anteriormente hasta unirse a la fascia visceral (mesorrecto) unos 3-5 cm por encima de la unión anorrectal. Aunque su altura es variable, es más frecuente que su origen ocurra en S4 (46%), seguidos de S3 (38%) y S2 (15%). Se trata de la fascia rectosacra que divide el espacio retrorrectal en 2 áreas: una superior y otra inferior. Distal a esta fascia, la fascia parietal cubre la superficie anterior del sacro y desciende hasta fusionarse con la fascia visceral constituyendo el límite inferior del espacio retrorrectal o fascia de Waldeyer (**figura 1**).

Este espacio contiene múltiples estructuras embrionarias como son el neuroectodermo, la notocorda, el intestino distal y el proctodeo que experimenta una regresión. Por tanto contiene numerosas estirpes tisulares derivadas de las tres capas germinales incluyendo el tejido conectivo, los elementos neurales y el hueso³.

Nº paciente	Edad/sexo	Síntomas	Estudio preoperatorio	Cirugía	Vía de abordaje	Resultado AP
1	51/Varón	Otros (dolor abdominal, rectorragia)	Ambos	Sí	Posterior	Hamartoma quístico
2	45/Mujer	Asintomático	Ambos	No	-	
3	56/Mujer	Otros (dolor abdominal, rectorragia)	RMN	No	-	
4	36/Varón	Otros (dolor abdominal, rectorragia)	Ambos	Sí	Posterior	Hamartoma quístico
5	52/Mujer	Dolor anal	RMN	No	-	
6	45/Mujer	Supuración anal	RMN	Sí	Abdominal	Quiste mesotelial
7	48/Mujer	Asintomático	Ambos	No	-	
8	69/Mujer	Dolor anal	Ambos	No	-	
9	41/Mujer	Dolor anal	Ambos	No	-	
10	47/Varón	Dolor anal	RMN	No	-	
11	73/Mujer	Otros (dolor abdominal, rectorragia)	Ambos	No	-	
12	58/Mujer	Otros (dolor abdominal, rectorragia)	TAC	Sí	Abdominal	Tumor neuroendocrino
13	56/Varón	Supuración anal	RMN	Sí	Posterior	Hamartoma quístico
14	59/Varón	Dolor anal	RMN	Sí	Posterior	Cordoma presacro
15	88/Mujer	Otros (dolor abdominal, rectorragia)	TAC	No	-	
16	81/Mujer	Dolor anal	RMN, PAAF	No	-	Hamartoma quístico con componente escamoso (PAAF)
17	65/Varón	Supuración anal	RMN	Sí	Posterior	Hamartoma quístico
18	29/Varón	Dolor anal	RMN	Sí	Posterior	Adenocarcinoma enteroide
19	35/Mujer	Supuración anal	RMN	No	-	
20	60/Varón	Asintomático	Ambos	No	-	
21	39/Mujer	Dolor anal	Ambos	Sí	Abdominal	Hamartoma quístico
22	32/Mujer	Dolor anal	TAC	Sí	Posterior	Hamartoma quístico
23	51/Varón	Dolor anal	RMN	Sí	Posterior	Hamartoma quístico
24	11/Mujer	Asintomático	TAC	Sí	Posterior	Teratoma quístico

Tabla 1. características de las lesiones retrorectales.



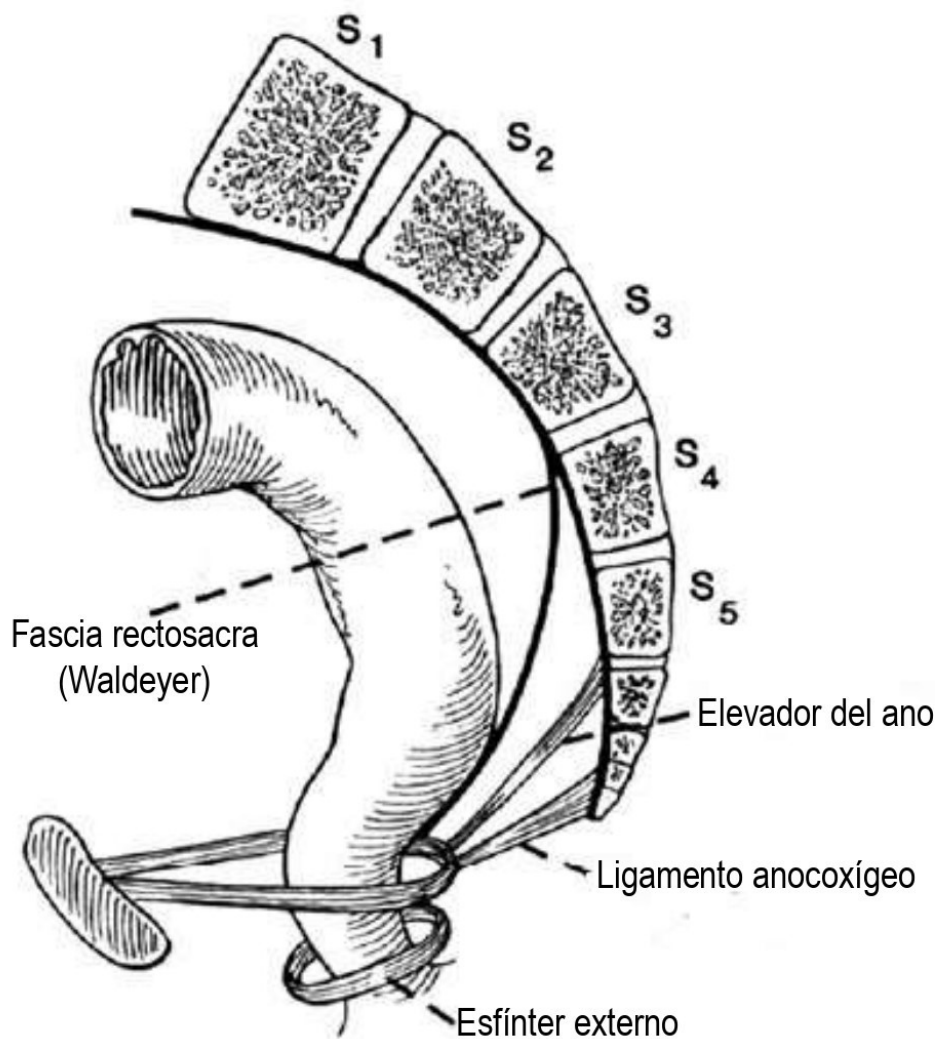


Figura1. Límites del espacio retrorrectal²

Los tumores retrorrectales representan un grupo heterogéneo de lesiones predominantemente benignas y ocasionalmente malignas con al menos 25 tipos histológicos descritos. Las lesiones sólidas tienen más tendencia a la malignidad respecto a las lesiones quísticas (60% vs 10%).

Varias son las clasificaciones que podemos encontrar en la literatura aunque la más usada es la de Uhlig & Johnson⁴ que clasifica las lesiones en cinco categorías: congénitas, inflamatorias, neurogénicas, óseas y misceláneas (tabla 2).

Son lesiones de lento crecimiento y suelen ser asintomáticas (25-50%). Con frecuencia suelen diagnosticarse de manera casual durante el examen físico o por pruebas complementarias. Independientemente de su origen, causan una sintomatología similar debido a su localización en el espacio presacro, que ven-

drá condicionada por el tamaño de la lesión, el efecto masa y la presencia de infección.

Entre sus manifestaciones clínicas pueden debutar como dolor sordo en la región perineal, estreñimiento crónico, incontinencia urinaria o fecal por afectación del plexo pélvico, disfunción sexual o secreción de la región sacrocoxígea o perianal que sugieran patología fistulosa anal. Una historia de sepsis recurrente o fistulización debe aumentar la sospecha de una lesión subyacente.

En nuestra serie es más frecuente la sintomatología frente a aquellas que se comportan de forma asintomática. El síntoma cardinal es el dolor anal (41.7%) seguido de dolor abdominal y/o rectorragia (25%). La supuración anal de repetición y las lesiones asintomáticas ocurren en torno al 16.7%.

ETIOLOGÍA	BENIGNO	MALIGNO
CONGÉNITOS (55-65%)	Quistes del desarrollo (tailgut). Quistes dermoides. Quistes epidermoides. Quiste de duplicación rectal. Teratoma. Restos de tumores adrenales.	Teratocarcinoma. Cordoma.
NEUROGÉNICOS (10-12%)	Neurofibroma. Ependimoma. Neuroblastoma. Schwannoma. Meningocele sacro anterior. Ganglioneuroma.	Ganglioneuroblastoma. Neurofibrosarcoma. Schwannoma maligno.
INFLAMATORIOS (5%)	Granulomas. Absceso perineal o pelvirrectal. Diverticulitis rectal. Enfermedad de Crohn.	
ÓSEOS (5-11%)	Osteoma. Quiste simple. Quiste óseo aneurismático.	Osteosarcoma. Tumor de Ewing. Condrosarcoma.
MISCELÁNEAS (12-16%)	Mielolipoma. Fibroma. Leiomioma. Endotelioma. Tumor desmoide.	Metástasis. Liposarcoma. Fibrosarcoma. Carcinoide. Leiomiomasarcoma.

Tabla 2. Clasificación de las lesiones retrorrectales.

Suelen ser lesiones infradiagnosticadas y pueden permanecer indetectables durante mucho tiempo. Debido al retraso en el diagnóstico, pueden crecer hasta alcanzar gran tamaño invadiendo estructuras vasculares y nerviosas haciendo un manejo más complejo.

Para el diagnóstico de estas lesiones se emplean rutinariamente la Tomografía Axial Computarizada (TAC) y la Resonancia Magnética Nuclear (RMN) pélvica, permitiendo determinar el tamaño de la lesión, delimitar la relación con las estructuras vecinas y el grado de extensión loco-regional. Mediante la TAC se puede distinguir la naturaleza de la lesión (sólida, líquida, mixta) así como la posible afectación sacra o invasión de estructuras pélvicas. Mediante la RMN se puede definir los planos grasos y las relaciones de la masa con los huesos, los músculos y los nervios.

El diagnóstico es incidental con TAC (58.3%) como estudio de otros síntomas, con RMN

(41.7%) o mediante la combinación de ambas pruebas. Solo en 1 caso se realizó PAAF de la lesión para tipificar de acuerdo a la edad de la paciente.

Resulta controvertido el empleo de la biopsia tisular para confirmación del diagnóstico preoperatorio por el alto riesgo de siembra tumoral en el trayecto, especialmente en la lesiones de naturaleza maligna⁴. Por eso está contraindicada la toma de biopsias por vía transvaginal o transrectal a favor de las transcutáneas en caso de ser necesarias. En el caso de practicarse, es obligatoria la extirpación del trayecto de la biopsia una vez que se realice la intervención quirúrgica sobre la masa.

La ecografía anal se está implementando como medida diagnóstica más reciente. Se trata de una modalidad diagnóstica que aporta información de los planos tisulares entre la lesión y el recto, permitiendo la realización de biopsia guiada por ultrasonidos y la diferenciación de su naturaleza (sólida o quística). La existencia de loculaciones ayuda en el diagnóstico di-



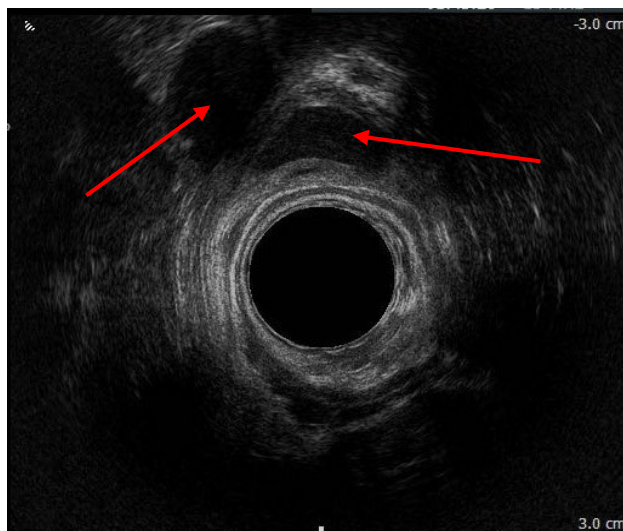


Figura 2. Lesión anecoica en reloj de arena (flechas).

ferencial de lesiones quísticas⁵. Además permite su caracterización intraoperatoria (**figura 2**) así como la confirmación en su extirpación.

El tratamiento que se recomienda en este tipo de lesiones es la cirugía radical “en bloque” a pesar del carácter benigno y asintomático de las mismas ya que algunas de estas lesiones benignas pueden acabar degenerando en el curso de su evolución.

En nuestra serie se plantea el tratamiento quirúrgico al 50% mientras que el 50% restante han permanecido bajo observación periódica, rechazando la intervención por pequeño tamaño o por comorbilidades asociadas.

En los pacientes intervenidos, la vía de elección ha sido posterior mediante un acceso laterosacro mayoritariamente (75%), con 3 casos vía abdominal (25%), manteniendo solo el 29.2% el seguimiento.

La elección en cuanto a la vía de abordaje dependerá del tamaño, la localización y la relación con las estructuras vecinas⁶. Para aquellas lesiones cuyo extremo proximal esté por debajo de S3 se recomienda un abordaje por vía posterior que resultará más efectivo para la extirpación completa. Aquellas lesiones que se extiendan por encima de S3 podrán ser abordadas por una vía abdominal o combinada. Durante la resección se debe tener extremo cuidado evitando la rotura del quiste para minimizar la posibilidad de recurrencia tanto en lesiones benignas como malignas.

Históricamente la primera referencia al abordaje posterior data de 1875 donde Verneuil y Kocher describen el acceso al espacio retrorrectal mediante coccipectomía. Kraske (1885) describe la resección parcial sacra. Cripps (1876) menciona el abordaje transesfintérico sin sutura esfinteriana y Mason (1974) hace lo propio mediante el abordaje transesfintérico parasacro izquierdo. Una variante a la técnica de Kraske es la técnica de Osaka en la que para llevar a cabo la resección se practica una osteotomía a través de los forámenes sacros evitando lesionar las raíces sacras y movilizándolo la porción sacra más lateral⁷.

Cuando se habla de abordaje posterior son varias las vías de acceso descritas para alcanzar el espacio retrorrectal como son los accesos interesfintéricos, transesfintéricos, parasacrocoxígeo, trans-sacro, trans-sacrocoxígeo, transrectal o transvaginal⁸.

El abordaje parasacrocoxígeo lateral es la vía de elección planteada en nuestra serie siempre que se realice un abordaje posterior al tratarse de lesiones por debajo de S3. No obstante es una vía de abordaje que también está indicada en el tratamiento de otras patologías como son las fistulas extraesfinterianas, las fistulas rectouretrales, las malformaciones congénitas y en el tratamiento de la patología compresiva del nervio pudiendo. Respecto a otras vías de abordaje posterior respeta el complejo anal dado que no requiere la sección del aparato esfinteriano.

Esta vía lateral es más apropiada en las lesiones muy bajas⁶ (cuando el borde superior de la le-

sión es palpable en el tacto rectal), menores de 5 cm y en los casos de sobreinfección. Tras acceder al espacio retrorrectal previa sección del músculo elevador del ano, el campo de exposición suele ser adecuado sin necesidad de tener que llevar a cabo la resección del coxis. Todos los pacientes sometidos a esta vía de abordaje deben recibir preparación intestinal mecánica y antibiótica en previsión a que pueda existir conexión entre el quiste y el recto o que la invasión de la lesión exija resección parcial de la pared rectal y cierre posterior⁹.

El abordaje posterior es factible ante la ausencia de invasión rectal y sacra. Entre sus ventajas se incluyen un acceso más directo, un campo de exposición más preciso y una recuperación más rápida. Mientras que las desventajas son un campo de trabajo pequeño, la ausencia de control vascular y la posibilidad de lesionar los nervios pélvicos laterales¹⁰. El porcentaje de complicaciones es más alto cuando precisa de una resección ósea o sacra siendo necesario en este último caso que se practique por debajo de S2 para evitar incontinencia fecal o urinaria iatrogénica³.

Las complicaciones postoperatorias más frecuentes son dolor local (20%), incontinencia fecal (13%) y fístula (20%).

El estudio anatomopatológico de las piezas intervenidas muestra que la estirpe más frecuente es el hamartoma quístico retrorrectal (61.5%) con 1 paciente donde además se asocia a un componente escamoso. Otras estirpes lesionales en nuestra

serie muestran teratoma quístico, tumor neuroendocrino, cordoma presacro y quiste mesotelial en la misma proporción (7.6%). Solamente hemos constatado un caso de malignización que corresponde a un adenocarcinoma enteroide (7.6%).

Los quistes del desarrollo (hamartomas quísticos o *tailgut*) corresponden a la variante más frecuente de tumores en este espacio y aparecen en la 4^a-5^a décadas de la vida siendo más comunes en las mujeres³. Su comportamiento es benigno, más de la mitad son asintomáticos aunque se estima que un tercio se sobreinfectan por lo que pueden llegar a mimetizar con abscesos supraelevadores o fístulas anales complejas.

Conclusiones

Los hamartomas quísticos retrorrectales (HQR) son las lesiones más frecuentes con escaso potencial de malignización.

La vía de abordaje de elección en los casos indicados se delimita a la altura de S3 como referencia siendo la vía abdominal cuando están localizados por encima de esta altura y la vía posterior cuando las lesiones se sitúan por debajo.

No se recomienda el uso de la PAAF por el riesgo de diseminación en casos de malignidad así como el riesgo de fistulización.

Bibliografía

1. García-Armengol J, García-Botello S, Martínez-Soriano F, Roig JV, Lledo S. Review of the anatomic concepts in relation to the retrorectal space and endopelvic fascia: Waldeyer's fascia and the rectosacral fascia. *Colorectal Dis*. 2008; 10(3): 298-302. doi: 10.1111/j.1463-1318.2007.01472.x.
2. Bullard Dunn K. Retrorectal Tumors. *Surg Clin North Am*. 2010 Feb;90(1):163-71, Table of Contents. doi: 10.1016/j.suc.2009.09.009.
3. Ghosh J, Eglinton T, Frizelle FA, Watson AJM. Presacral tumors in adults. *Surgeon* 2007 Feb; 5(1): 31-38. doi: 10.1016/s1479-666x(07)80109-0.
4. Messik CA. Presacral (Retrorectal) Tumors: Optimizing the Management Strategy. *Dis Col Rectum*. 2018 Feb; 61 (2): 151-153. doi: 10.1097/DCR.0000000000001021.
5. García Cabrera AM, Herrera JC. Papel de la ultrasonografía anorrectal en la valoración de las neoplasias menos frecuentes del recto. En: De la Portilla De Juan F. Compendio teórico práctico de ecografía anorrectal y colónica endoscópica. España: Fundación para la Investigación y Formación en Coloproctología (FOINCO); 2012. P223-233. ISBN: 978-84-616-2775-2
6. Tarchouli M, Zentar A, Brahim Ratbi M, Bensal A, Reda Khmamouche M, Ait Ali A et al. Perineal approach for surgical treatment in a patient with retro-rectal tumor: a case report and review of the literature. *BMC Res Notes*. 2015; 8: 470. doi: 10.1186/s13104-015-1457-5.



7. Toh JW, Morgan M. Management approach and surgical strategies for retrorectal tumors: a systematic review. *Colorectal Disease* 2016 Apr; 18 (4): 337-350. doi: 10.1111/codi.13232.
8. Saxena D, Pandey A, Bugalia RP, Kumar M, Kadam R, Agarwal V et al. Management of presacral tumors: Our experience with posterior approach. *Int J Surg Case Rep* 2015; 12: 37-40. doi: 10.1016/j.ijscr.2015.05.015.
9. Singer MA, Cintron JR, Martz JE, Schoetz DJ, Abcarian H. Retrorectal Cyst: a rare tumor frequently misdiagnosed. *J Am Coll Surg*. 2003 Jun; 196 (6): 880-886. doi: 10.1016/S1072-7515(03)00133-9.
10. Aranda Narváez JM, González Sánchez AJ, Montiel Casado C, Sánchez Pérez B, Jiménez Mazure C, Valle Carbajo M et al. Posterior approach (Kraske procedure) for surgical treatment of presacral tumors. *World J Gastrointest Surg* 2012 May 27; 4 (5): 126-130. doi: 10.4240/wjgs.v4.i5.126.