

*Carcinoma escamoso de recto y fístula rectovaginal
traumática: Relación o coincidencia?
Reporte de un caso*

Ángel Hugo Becerra del Carpio¹, Teodoro Quispicondor Ramón², Ricardo H. Bardales³

RESUMEN

El carcinoma escamoso primario de recto es raro, y su etiopatogenia no está esclarecida. Asimismo el carcinoma escamoso rectal en pacientes con fístula rectovaginal en ausencia de cáncer ginecológico es extremadamente raro. Reportamos uno de tales casos que se diagnosticó un año después de fístula traumática rectovaginal no tratada. También realizamos una revisión de la literatura y una discusión de la probable asociación entre ambos procesos.

PALABRAS CLAVES: recto, carcinoma escamoso, trauma, fístula rectovaginal

SUMMARY

Primary squamous cell carcinoma of the rectum is rare and its cause and pathogenesis are not clear. Likewise, rectal squamous cell carcinoma in patients with rectovaginal fistula in the absence of gynecologic cancer is extremely rare. We report one of such cases that was diagnosed a year after an untreated traumatic rectovaginal fistula. We also reviewed the literature and discussed the probable association between both processes.

KEY WORDS: rectum, squamous cell carcinoma, trauma, rectovaginal fistula

- 1 Médico Gastroenterólogo. Jefe del Servicio de Gastroenterología. Hospital Carlos Monge Medrano. Juliaca. Perú.
- 2 Médico Anatomopatólogo. Ex Jefe del Departamento de Patología Clínica y Anatomía Patológica. Hospital Nacional del Sur IPSS. Arequipa. Perú.
- 3 Médico Internista, Anatomopatólogo. Director del Servicio de Citología del Hospital del Condado de Hennepin. Profesor Asociado de Patología, Escuela de Medicina de la Universidad de Minnesota.

INTRODUCCIÓN

Se estima que más de 180,000 nuevos casos de cáncer colorectal serán diagnosticados en el año 2005. Más del 90% de cánceres colorectales son adenocarcinomas y la mayoría de los restantes son sarcomas, linfomas, y tumores neuroendocrinos. Los carcinomas escamoso puro y mixto son raros ⁽¹⁾.

Carcinoma escamoso primario de recto es una entidad distinta al carcinoma escamoso anal que se origina en la unión anorectal. Desde su descripción inicial hecha por Schmidtman en 1919, se han reportado aproximadamente 80 casos ^(1, 2). Estos tumores se presentan clínicamente de manera similar al carcinoma colorectal y tienen una historia natural muy parecida, aunque la causa y patogénesis no están bien aclaradas ⁽³⁾. Del mismo modo, el desarrollo de carcinoma escamoso relacionado a fístula rectovaginal en ausencia de cáncer ginecológico es extremadamente raro ^(4, 5).

Presentamos un caso de carcinoma escamoso del recto en una paciente con historia de fístula rectovaginal traumática no tratada de un año de evolución. Revisamos la literatura y discutimos la posible asociación entre estas dos entidades.

REPORTE DE UN CASO

Paciente de sexo femenino, de 49 años de edad, analfabeta, casada, natural y procedente del Altiplano; es transferida al hospital el 5 de Diciembre de 2003 con el diagnóstico de sepsis y fístula rectovaginal.

La paciente no tuvo antecedentes quirúrgicos o historia de cáncer (específicamente pulmonar, vejiga urinaria, o ginecológico), enfermedad inflamatoria intestinal, o diverticulosis colónica. Refiere que un año antes de la admisión sufrió una agresión física con penetración violenta de un objeto de madera en la vagina. Desde esa instancia, la paciente ha presentado episodios de sangrado vaginal y deposiciones sanguinolentas. Cuatro meses antes de la admisión, la paciente refiere eliminación de heces por vía vaginal, dolor hipogástrico de aumento progresivo, y últimamente oliguria. Se desconocen los antecedentes sociales y hábitos nocivos de esta paciente.

El examen físico reveló una masa abdominal palpable y dolorosa en la región del hipogastrio. El tacto rectal mostró un defecto de la pared anterior del recto en comunicación con la vagina a 7 cm del margen anal. Igualmente, en el tacto vaginal se notó una solución de continuidad irregular de 2 cm de diámetro en la pared posterior de la vagina en comunicación con el recto. La paciente fue operada el 30 de Diciembre de 2003. El área fistulosa no se pudo visualizar al estar bloqueada por el cuerpo uterino, pero se realizó un sigmoidectomía parcial con cierre del muñón distal y colostomía. Dos semanas después de la cirugía, se constató material fecal en la vagina y el examen colposcópico demostró la fístula descrita en el tacto vaginal, cuello uterino engrosado y eritematoso sin otras lesiones visibles, y útero ligeramente aumentado de tamaño. La colposcopia fue negativa para lesiones tumorales y se atribuyó que las heces procedían del muñón distal. El examen de la vulva

fue negativo para neoplasia. La proctoscopia evidenció múltiples lesiones mamelonadas de diferente tamaño, sangrantes y confluentes en toda la circunferencia del recto, 7 cm por encima del margen anal, que imposibilitaron tanto el avance del proctoscopio así como la identificación de la fístula descrita en el examen anterior. El diagnóstico proctoscópico fue neoplasia maligna. No se evidenció comunicación entre la neoplasia y el epitelio escamoso anal. El diagnóstico histopatológico de estas lesiones fue "carcinoma escamoso infiltrante bien diferenciado." El tumor estuvo presente en todas las biopsias obtenidas de diferentes áreas del tumor. (Figuras 1 y 2)

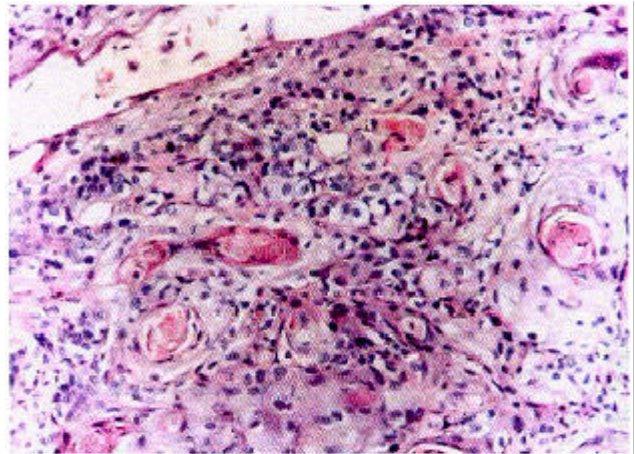


Figura 1. Sección histológica mostrando carcinoma escamoso bien diferenciado con queratinización concéntrica (perlas escamosas). (Hematoxilina y eosina, x 100).

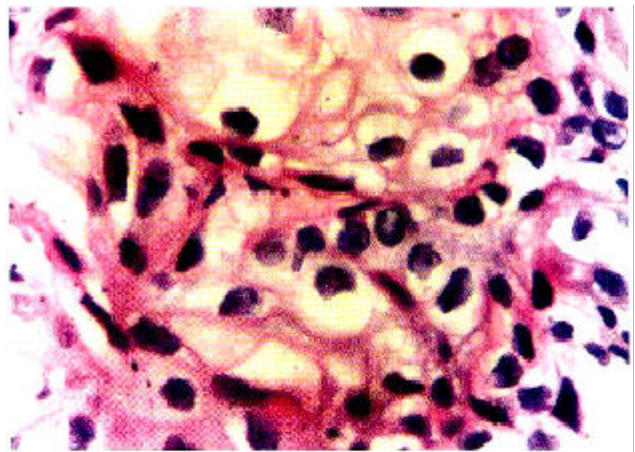


Figura 2. Esta área magnificada de la sección anterior muestra células atípicas con nucleolo prominente y bordes citoplasmáticos bien definidos. (Hematoxilina y eosina, x 400).

El curso clínico se complicó con sepsis y a pesar del tratamiento antibiótico y de soporte, la evolución de la paciente fue desfavorable y falleció en el día 35 del postoperatorio.

DISCUSIÓN

Hemos presentado un caso de carcinoma escamoso de recto diagnosticado en una paciente con historia clínica de fístula rectovaginal traumática de un año de evolución. La colposcopia fue negativa para neoplasia vaginal o de cuello

uterino, y la proctoscopia demostró una masa tumoral circunferencial extensa en el recto 7 cm por encima del margen anal. El diagnóstico histopatológico fue carcinoma escamoso bien diferenciado.

El carcinoma escamoso de recto puede ser puro, mixto escamosoglandular cuando se combina con elementos glandulares, o de diferenciación multidireccional cuando muestra elementos glandulares y endocrinos además del escamoso. El carcinoma escamosoglandular primario y el adenoacantoma son tumores raros aunque mas frecuentes que el carcinoma escamoso puro o el multidireccional⁽⁶⁻⁸⁾. El carcinoma de diferenciación multidireccional es extremadamente raro; sin embargo, la ocurrencia de carcinoma con diferenciación endocrina es un fenómeno bien conocido⁽⁹⁾.

En relación al desarrollo de carcinoma escamoso colorectal, se han propuesto varias teorías para explicar la histogénesis del epitelio escamoso dentro del colon y recto. Por un lado, y basado en el hecho de que el carcinoma escamoso colorectal se asocia frecuentemente con elementos glandulares y mas raramente es escamoso puro, se postula que su origen está en células pluripotenciales con capacidad de diferenciación celular multidireccional⁽⁹⁻¹²⁾. Por otro lado, las células escamosas podrían originarse como resultado de una metaplasia escamosa que ocurriría en restos embriológicos y el resultado sería un carcinoma escamoso puro^(13, 14). La proliferación de células de reserva o metaplasia escamosa de la mucosa colorectal como resultado de irritación o injuria crónica son también teorías propuestas para explicar la aun desconocida etiología del carcinoma escamoso colorectal⁽¹⁵⁾.

El carcinoma escamoso primario puro de recto tiene una incidencia estimada de 0.25 a 0.1 por 1000 neoplasias colorectales^(1, 3, 16-18). Criterios propuestos para su diagnóstico incluyen ausencia de: 1) carcinoma escamoso primario que podría ser una fuente de metástasis intestinal, 2) continuidad entre el tumor y el epitelio escamoso anal, 3) diferenciación glandular, y 4) fístula intestinal escamosa^(14, 15). Una fuente primaria de metástasis se descarta en nuestro caso en base a la historia clínica. Igualmente, podemos excluir la segunda posibilidad basada en la localización del tumor 7 cm por encima del margen escamoso anal y la falta de evidencia de carcinoma escamoso anal o de la unión anorectal en el examen proctoscópico y tacto rectal realizados. Sin embargo, a pesar de la obtención de biopsias en varias áreas del tumor, es aun posible que la porción glandular de un carcinoma mixto escamosoglandular no se haya podido obtener por un error de muestreo y por lo tanto el tercer criterio pudiera no cumplirse en nuestro caso.

Una fístula intestinal escamosa puede ser de naturaleza neoplásica y no neoplásica. En fístula rectovaginal relacionada con carcinoma escamoso ginecológico primario, el tumor usualmente se desarrolla varios años después del tratamiento radioterapéutico local y son precedidos de proctitis y/o estenosis rectal⁽¹⁹⁻²³⁾. El examen colposcópico negativo para neoplasia maligna ginecológica excluye la posibilidad de carcinoma escamoso vaginal o cervical como causa de la fístula rectovaginal en este caso. El carcinoma colorectal en relación a enfermedad inflamatoria intestinal (enfermedad de Crohn y colitis ulcerativa) es por lo general un adenocarcinoma y se presenta en pacientes con una larga historia de enfermedad^(19, 24-26). Carcinoma escamoso en relación a enfermedad inflamatoria intestinal

fistulizante es raro, de historia natural similar a los casos colorectales, y su presentación es anal o anorectal^(5, 24).

Carcinoma escamoso en la pleura asociado con metaplasia escamosa se ha descrito en asociación con empiema y fístula broncopulmonar de 5 meses de evolución en un paciente con bronquiectasias⁽²⁷⁾. Igualmente, años después de la creación quirúrgica artificial de una neovagina y aplicación de un falo artificial para evitar la estenosis del canal vaginal se desarrolló ulceración de la mucosa de la pared vaginal posterior seguido de fístula rectoneovaginal, y subsecuentemente carcinoma escamoso de la neovagina⁽⁴⁾. La razón por la transformación maligna es desconocida. Se postula que una superinfección viral con el virus papiloma humano pudiera ser un factor contribuyente a la irritación mecánica crónica producida por el falo^(4, 15). Esta teoría es soportada por la detección mediante análisis biológicos moleculares del virus papiloma humano de alto riesgo (tipo 16) en la mucosa rectal normal y en las áreas de metaplasia escamosa, displasia, y carcinoma de un caso de carcinoma escamoso primario de recto. En este mismo estudio, no se detectó el virus papiloma humano en los cuatro casos de adenocarcinoma rectal estudiados.^(4, 15) Asimismo, no se ha demostrado virus papiloma humano en adenocarcinomas rectales o carcinomas escamosos del ano relacionados con fístula crónica en enfermedad de Crohn.^(19, 24-26) La carcinogenicidad de algunos polisacáridos sulfatados demostrada en ratas en las cuales produce de manera secuencial colitis, metaplasia escamosa, displasia escamosa, y carcinoma escamoso, podría jugar un rol en la génesis del carcinoma escamoso de recto en humanos⁽²⁸⁾. Estos factores aislados o en combinación podrían explicar el desarrollo del carcinoma escamoso en nuestra paciente.

En resumen, presentamos un caso de carcinoma escamoso de recto asociado a una fístula rectovaginal traumática de un año de evolución y discutimos los posibles mecanismos patogénicos para su desarrollo. La magnitud de la masa tumoral y la corta duración de la fístula hacen postular que el carcinoma escamoso precedió al trauma que produjo la fístula rectovaginal. Al parecer, las cepas de alto riesgo del virus papiloma humano juegan un papel importante en la histogénesis del carcinoma escamoso de recto.

REFERENCIAS

BIBLIOGRÁFICAS

1. JUTURI JV, FRANCIS B, KOONTZ PW, WILKES JD. Squamous-cell carcinoma of the colon responsive to combination chemotherapy: report of two cases and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 1999;42(1):102-9.
2. VRAUX H, KARTHEUSER A, HAOT J, et al. Primary squamous-cell carcinoma of the colon: a case report. *Acta Chir Belg* 1994;94(6):318-20.
3. PIGOTT JP, WILLIAMS GB. Primary squamous cell carcinoma of the colorectum: case report and literature review of a rare entity. *J Surg Oncol* 1987;35(2):117-9.
4. SCHULT M, HECKER A, LELLE RJ, SENNINGER N, WINDE G. Recurrent rectoneovaginal fistula caused by

- an incidental squamous cell carcinoma of the neovagina in Mayer-Rokitansky-Kuster-Hauser syndrome. *Gynecol Oncol* 2000;77(1):210-2.
5. WALGENBACH S, JUNGINGER T, MULLER JM. [Squamous epithelial carcinoma of the anorectal junction in Crohn disease with an anal fistula of many years' duration]. *Dtsch Med Wochenschr* 1984;109(16):618-21.
 6. SCHLEGEL RD, DEHNI N, CRAVINO AT, et al. Primary adenosquamous carcinoma of the rectum. Report of 4 cases and review of the literature. *Colorectal Dis* 2001;3(3):201-3.
 7. MICHELASSI F, MISHLOVE LA, STIPA F, BLOCK GE. Squamous-cell carcinoma of the colon. Experience at the University of Chicago, review of the literature, report of two cases. *Dis Colon Rectum* 1988;31(3):228-35.
 8. BERKELHAMMER CH, BAKER AL, BLOCK GE, BOSTWICK DG, MICHELASSI F. Humoral hypercalcemia complicating adenosquamous carcinoma of the proximal colon. *Dig Dis Sci* 1989;34(1):142-7.
 9. NOVELLO P, DUVILLARD P, GRANDJOUAN S, et al. Carcinomas of the colon with multidirectional differentiation. Report of two cases and review of the literature. *Dig Dis Sci* 1995;40(1):100-6.
 10. PALVIO DH, SORENSEN FB, KLOVE-MOGENSEN M. Stem cell carcinoma of the colon and rectum. Report of two cases and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 1985;28(6):440-5.
 11. OUBAN A, NAWAB RA, COPPOLA D. Diagnostic and pathogenetic implications of colorectal carcinomas with multidirectional differentiation: a report of 4 cases. *Clin Colorectal Cancer* 2002;1(4):243-8.
 12. ONISHI R, SANO T, NAKAMURA Y, et al. Ectopic adrenocorticotropin syndrome associated with undifferentiated carcinoma of the colon showing multidirectional neuroendocrine, exocrine, and squamous differentiation. *Virchows Arch* 1996;427(5):537-41.
 13. CEREZO L, ALVAREZ M, EDWARDS O, PRICE G. Adenosquamous carcinoma of the colon. *Dis Colon Rectum* 1985;28(8):597-603.
 14. WILLIAMS GT, BLACKSHAW AJ, MORSON BC. Squamous carcinoma of the colorectum and its genesis. *J Pathol* 1979;129(3):139-47.
 15. SOTLAR K, KOVEKER G, AEPINUS C, SELINKA HC, KANDOLF R, BULTMANN B. Human papillomavirus type 16-associated primary squamous cell carcinoma of the rectum. *Gastroenterology* 2001;120(4):988-94.
 16. LAFRENIERE R, KETCHAM AS. Primary squamous carcinoma of the rectum. Report of a case and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 1985;28(12):967-72.
 17. BHATS, PAIM, PREMNATH RP. Primary squamous cell carcinoma of caecum. *Indian J Cancer* 2003;40(3):118-9.
 18. CELESTINO A, CASTILLO T, FRISANCHO O, et al. [Colorectal cancer: study on 365 cases]. *Rev Gastroenterol Perú* 1996;16(3):187-96.
 19. BAHADURSINGH AM, LONGO WE. Colovaginal fistulas. Etiology and management. *J Reprod Med* 2003;48(7):489-95.
 20. SACLARIDES TJ. Rectovaginal fistula. *Surg Clin North Am* 2002;82(6):1261-72.
 21. YEGAPPAN M, HO YH, NYAM D, LEONG A, EU KW, SEOW C. The surgical management of colorectal complications from irradiation for carcinoma of the cervix. *Ann Acad Med Singapore* 1998;27(5):627-30.
 22. PEREZ CA, GRIGSBY PW, CHAO C, et al. Irradiation in carcinoma of the vulva: factors affecting outcome. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 1998;42(2):335-44.
 23. EMMERT C, KOHLER U. Management of genital fistulas in patients with cervical cancer. *Arch Gynecol Obstet* 1996;259(1):19-24.
 24. GILBERT JM, MANN CV, SCHOLEFIELD J, DOMIZIO P. The aetiology and surgery of carcinoma of the anus, rectum and sigmoid colon in Crohn's disease. Negative correlation with human papillomavirus type 16 (HPV 16). *Eur J Surg Oncol* 1991;17(5):507-13.
 25. MOORE-MAXWELL CA, ROBBOY SJ. Mucinous adenocarcinoma arising in rectovaginal fistulas associated with Crohn's disease. *Gynecol Oncol* 2004;93(1):266-8.
 26. BUCHMANN P, ALLAN RN, THOMPSON H, ALEXANDER-WILLIAMS J. Carcinoma in a rectovaginal fistula in a patient with Crohn's disease. *Am J Surg* 1980;140(3):462-3.
 27. PRABHAKAR G, MITCHELL IM, GUHA T, NORTON R. Squamous cell carcinoma of the pleura following bronchopleural fistula. *Thorax* 1989;44(12):1053-4.
 28. ISHIOKA T, KUWABARA N, OOHASHI Y, WAKABAYASHI K. Induction of colorectal tumors in rats by sulfated polysaccharides. *Crit Rev Toxicol* 1987;17(3):215-44.