

Auto-Amputação do Ovário em Idade Pediátrica

Paediatric Ovarian Autoamputation

Joana Matias¹, Maria Cabral², Luísa Carmona², Isabel Vieira²

1. Serviço de Pediatria, Hospital Garcia de Orta, EPE, Almada, Portugal
2. Serviço de Cirurgia Pediátrica, Hospital Garcia de Orta, EPE, Almada, Portugal

Acta Pediatr Port 2016;47:87-90

Resumo

Apresenta-se o caso clínico de uma primigesta saudável com diagnóstico pré-natal de quisto do ovário direito do feto, detetado ecograficamente às 30 semanas de gestação. As ecografias realizadas no período neonatal confirmaram a presença de uma formação quística anexial heterogénea com cerca de 35 mm de maior diâmetro. Dadas as características complexas da formação, optou-se pela sua remoção cirúrgica precoce. Durante a cirurgia, constatou-se a presença de uma lesão quística auto-amputada. A auto-amputação é uma complicação rara desta patologia, surgindo na sequência da torção do ovário durante o período fetal ou neonatal sendo muito difícil de detetar pré-operatoriamente. A avaliação ecográfica seriada é fundamental no acompanhamento dos tumores anexiais do ovário, permitindo identificar os quistos associadas a maior risco de complicações e com indicação para tratamento.

Palavras-chave: Quistos Ováricos; Ovário/anormalidades; Anormalidade Torcional; Diagnóstico Pré-Natal; Ecografia

Abstract

During the pregnancy follow-up of a healthy primigravida, a foetal right ovarian cyst was diagnosed on prenatal 30-week ultrasound. Postnatal ultrasound scans confirmed the presence of a 35 mm-wide heterogeneous adnexal cyst. Given the complex characteristics of the formation, the team opted for early surgical removal. During surgery, an autoamputated cystic mass was found in the abdomen. Autoamputation is a rare complication of this condition, very difficult to detect preoperatively, resulting from a twist of the ovary during the foetal or neonatal period. Serial prenatal ultrasound evaluation is essential to monitor ovarian adnexal masses, in order to identify cysts associated with an increased risk of complications and with indication for treatment.

Keywords: Ovarian Cysts; Ovary/abnormalities; Torsion Abnormality; Prenatal Diagnosis; Ultrasound

Introdução

O primeiro diagnóstico pré-natal de quisto do ovário foi realizado em 1975 por Valenti.¹ Desde então, com a utilização por rotina de ecografias obstétricas, com uma sensibilidade crescente, a identificação de lesões quísticas do ovário fetal tem vindo a aumentar.²⁻⁷ Atualmente, estima-se que a incidência de quistos do ovário clinicamente significativos seja de um em cada 2500 recém-nascidos.⁸

Os quistos foliculares são os mais frequentes.² A sua etiologia é ainda pouco clara, estando provavelmente relacionada com a exposição do tecido ovárico fetal a quantidades elevadas de hormonas gonadotróficas (hormona foliculo-estimulante fetal, estrogénios maternos e gonadotrofina coriônica humana placentária).^{2-5,9} Os quistos do ovário fetais, sobretudo se ecograficamente complexos (preenchidos por septos, detritos e coágulos e/ou com parede espessada),^{4,6} devem ser cuidadosamente vigiados devido ao potencial risco de complicações com consequente perda do órgão. Avaliações ecográficas seriadas devem ser realizadas até regressão espontânea da massa, o que habitualmente acontece até aos 4 a 6 meses de idade, ou até ao tratamento.^{2,7}

A intervenção cirúrgica está geralmente indicada para quistos do ovário sintomáticos, complexos, de diâmetro superior a 40 mm, de dimensões crescentes, persistentes após os 6 meses de idade ou que condicionem compressão das estruturas adjacentes.^{2,4-7} A aspiração percutânea é uma alternativa terapêutica em casos selecionados.⁹⁻¹² Nos quistos assintomáticos, simples e de dimensões inferiores a 40 mm, poder-se-á optar por uma atitude expectante.^{9,11}

São várias as complicações associadas a este tipo de patologia, como a torção (com eventual fenómeno de auto-amputação), hemorragia intra-quística (com possível hemorragia intra-abdominal e hemoperitoneu), peritonite após rotura, obstrução gastrointestinal ou genito-urinária por compressão extrínseca, parto distótico devido ao aumento do volume abdominal fetal

e até morte súbita do lactente.^{2,4,9} A torção, com uma incidência estimada de 25 a 78%, é a complicação mais frequente e a principal causa de intervenção cirúrgica.⁴⁻⁶ A auto-amputação é muito rara, com uma incidência descrita de um caso em cada 11421 quistos do ovário.⁷ Apresenta-se o caso clínico de uma complicação rara de quisto do ovário no período neonatal, sublinhando a importância da avaliação ecográfica seriada.

Caso Clínico

Numa primigesta saudável de 18 anos de idade, foi detetada, em ecografia pré-natal de rotina realizada às 30 semanas de gestação, uma volumosa formação quística na região pélvica direita do feto. Os exames ecográficos do primeiro e segundo trimestres não evidenciavam quaisquer anomalias fetais. Na referida ecografia identificou-se uma massa arredondada com 36 x 31 mm e conteúdo heterogéneo, sugestiva de quisto do ovário complexo. Mantiveram-se controlos ecográficos seriados até ao parto, verificando-se uma discreta diminuição das dimensões da formação, sem alterações da sua estrutura ou da sua localização. A gravidez decorreu sem outras intercorrências.

O parto foi de termo, eutócico e sem complicações. No exame objetivo a recém-nascida não apresentava alterações relevantes, nomeadamente massas abdominais ou pélvicas palpáveis. Teve alta clinicamente bem às 48 horas de vida, sendo referenciada para a consulta hospitalar de cirurgia pediátrica. Realizou ecografias abdomino-pélvicas no período neonatal precoce e às 3 semanas de vida, ambas descrevendo uma formação nodular ao nível da área anexial direita, de características heterogéneas e com cerca de 35 x 24 mm, confirmando o diagnóstico pré-natal de quisto anexial complexo (Fig.s 1 e 2).

A recém-nascida manteve-se sempre clinicamente bem e assintomática. Atendendo às características do quisto anexial optou-se pela intervenção cirúrgica ao mês de idade. Durante a cirurgia foi constatada a presença de uma formação quística auto-amputada, com cerca de 30 mm, de cor castanha e aspeto globalmente idêntico a um “quisto de chocolate” (Fig. 3); o ovário direito estava ausente e o útero e anexo esquerdo não tinham alterações macroscópicas.

O pós-operatório decorreu sem complicações. Histopatologicamente foi descrito um ovário com 6,6 g e 30 x 20 mm, de superfície externa acastanhada, com necrose isquémica e calcificações secundárias, preenchido por conteúdo hemorrágico, sem evidência de neoplasia. Fisiopatologicamente este achado remetia para a pro-

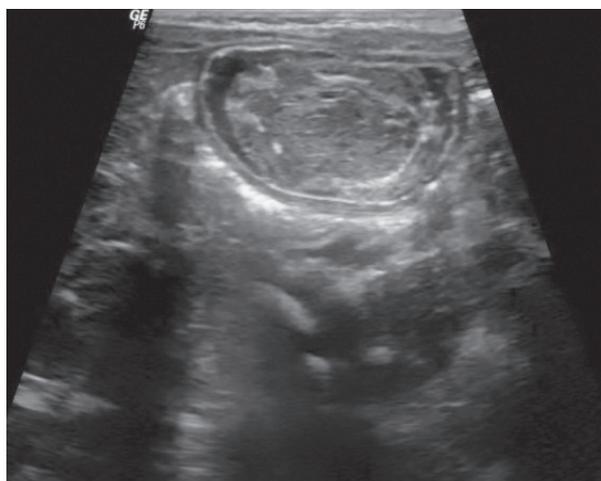


Figura 1.

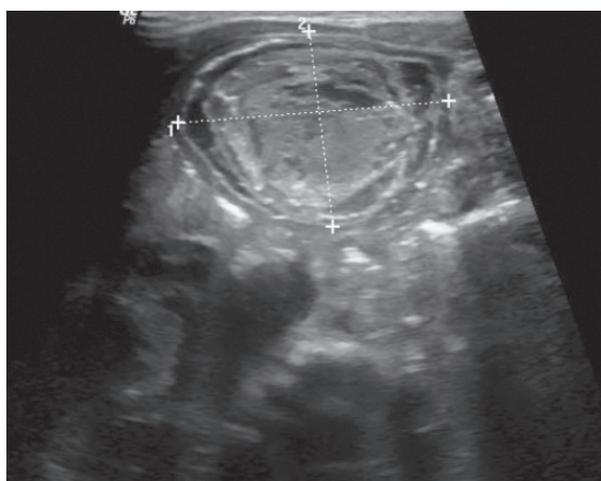


Figura 2.

Figuras 1 e 2. Ecografia pélvica realizada às três semanas de vida, confirmando a presença de uma formação quística na região anexial direita, de características heterogéneas, sugestiva de quisto do ovário complexo.



Figura 3. Imagem intraoperatória do ovário auto-amputado.

vável ocorrência de torção do ovário direito *in utero*, com consequente enfarte isquémico e fenómeno de auto-amputação.

Discussão

Os quistos do ovário são frequentes no período fetal e neonatal, estando o uso universal de ecografias obstétricas associado a um aumento do número de casos diagnosticados antes do nascimento.²⁻⁷ A sua identificação pré-natal implica uma avaliação imagiológica seriada, realizada a cada três a quatro semanas durante a gravidez, ao nascimento para confirmação do diagnóstico e posteriormente a cada quatro a seis semanas.^{4,8} Essa vigilância ecográfica permite identificar as situações passíveis de adoção de uma atitude expectante (evitando-se ooforectomias desnecessárias) e as situações com indicação terapêutica (prevenindo-se complicações potencialmente graves).²

A maioria dos quistos do ovário é folicular e regride espontaneamente durante os primeiros 6 meses de vida, após a eliminação gradual das hormonas maternas e placentárias da circulação sanguínea.^{2,4-6} Assim, é consensual que nos quistos assintomáticos, simples e de dimensões inferiores a 40 mm, se opte apenas por uma avaliação ecográfica regular.^{9,11}

Nos restantes quistos do ovário fetais e neonatais, a abordagem terapêutica é ainda controversa, não existindo estudos aleatorizados que comparem as diferentes opções terapêuticas.^{11,13,14} Estas incluem a aspiração quística percutânea (guiada por ecografia) e a cirurgia por laparoscopia ou laparotomia (aspiração quística, excisão quística ou ooforectomia).^{9-11,15} A aspiração percutânea é uma opção válida para o tratamento dos quistos simples e assintomáticos, com dimensões superiores a 40 mm.^{10,12,16} Tem a vantagem de não exigir anestesia geral, permitir a preservação do ovário e poder ser realizada no período pré-natal.^{9,10} No entanto, é uma técnica com algumas limitações – não permite observar o ovário contralateral ou a existência de aderências às ansas intestinais – e riscos – infeção pós-punção, rotura do quisto, hemorragia intraquística e lesão dos órgãos adjacentes.^{9,15,16} Atualmente, a sua utilização ainda não é consensual. Nos quistos do ovário sintomáticos, complexos ou de dimensões crescentes, a intervenção cirúrgica parece ser a melhor opção terapêutica.^{10,13} A laparotomia e a laparoscopia são igualmente seguras e eficazes no tratamento de quistos do ovário neonatais.¹⁵ A intervenção laparoscópica é um procedimento minimamente invasivo, tendo a vantagem de se associar a menor intensidade da dor pós-operatória, menor dura-

ção de internamento, recuperação mais rápida e melhores resultados estéticos.¹⁵ No entanto, implica uma longa curva de aprendizagem, devendo ser realizada em centros com experiência.¹⁵

Os quistos do ovário podem estar associados a várias complicações. A torção do ovário, habitualmente do ovário direito,¹⁴ é a complicação mais frequente, ocorrendo em 25 a 78% dos casos.⁴⁻⁶ A auto-amputação, como a que é descrita, é um fenómeno muito raro, sendo escassos os relatos nacionais desta complicação. Pensa-se resultar da torção crónica do ovário, habitualmente com lesão quística subjacente, durante o período fetal (na maioria dos casos) ou neonatal precoce com consequente enfarte, necrose e individualização do mesmo.^{6,7,17}

O diagnóstico de torção pode ser feito pré-operatoriamente através das avaliações ecográficas seriadas, sendo essencial a associação de Doppler. As características complexas do quisto, ainda que inespecíficas, sugerem esse diagnóstico mas, por vezes, o único sinal imagiológico de torção do ovário é a ausência dos seus fluxos venoso e arterial.^{12,14,18} No entanto, a presença de fluxo vascular normal não exclui esta complicação e a experiência no uso de Doppler nos quistos do ovário fetais e neonatais é ainda escassa.^{12,14,18} O diagnóstico de auto-amputação é habitualmente feito durante o ato cirúrgico pela identificação de uma massa necrótica livre no abdómen ou aderente aos órgãos adjacentes.¹⁴ A alteração da localização do quisto em ecografias seriadas e a presença de calcificações na sua parede são considerados marcadores imagiológicos desta complicação, ajudando no difícil diagnóstico pré-operatório.¹⁴

Embora seja rara, a auto-amputação do ovário pode associar-se a outro tipo de complicações, como obstrução intestinal e reimplantação no peritонеu com posterior transformação maligna.^{7,14} É, portanto, fundamental que esta entidade clínica não seja esquecida e que sempre que um quisto do ovário detetado ecograficamente não seja intra-operatoriamente encontrado na região anexial, seja procurado na restante cavidade peritoneal.^{5,17}

O QUE ESTE CASO ENSINA

- Os quistos do ovário são frequentes no período fetal e neonatal. A maioria é folicular e regride até aos 6 meses de idade.
- A sua identificação pré-natal implica uma avaliação ecográfica seriada, devido ao potencial risco de complicações.
- A torção do ovário é a complicação mais frequente. A auto-amputação após torção é um fenómeno raro, mas não deve ser esquecido.
- A abordagem terapêutica dos quistos do ovário sintomáticos, complexos ou de dimensões superiores a 40 mm ainda não é consensual.

Conflitos de Interesse

Os autores declaram a inexistência de conflitos de interesse na realização do presente trabalho.

Fontes de Financiamento

Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo.

Proteção de Pessoas e Animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estavam de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos responsáveis da Comissão de Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Confidencialidade dos Dados

Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de doentes.

Correspondência

Joana Matias
joanagmatias@gmail.com

Recebido: 10/06/2015

Aceite: 20/08/2015

Referências

1. Valenti C, Kassner EG, Yermakov V, Cromb E. Antenatal diagnosis of a fetal ovarian cyst. *Am J Obstet Gynecol* 1975;123:216-21.
2. Lilaia C, Sardinha T, Sarmento R, Pinho ML, Marques I, Lopes AP. Tumor anexial fetal. *Prog Diag Trat Prenat* 2008;20:38-42.
3. Vogtlander MF, Rijntjes-Jacobs EJ, van den Hoonaard TL, Versteegh FA. Neonatal ovarian cysts. *Acta Paediatr* 2003;92:498-509.
4. Akin MA, Akin L, Özbek S, Tireli G, Kavuncuoğlu S, Sander S, et al. Fetal-neonatal ovarian cysts--their monitoring and management: Retrospective evaluation of 20 cases and review of the literature. *J Clin Res Pediatr Endocrinol* 2010;2:28-33.
5. Aslam A, Wong C, Haworth JM, Noblett HR. Autoamputation of ovarian cyst in an infant. *J Pediatr Surg* 1995;30:1609-10.
6. Corbett HJ, Lamont GA. Bilateral ovarian autoamputation in an infant. *J Pediatr Surg* 2002;37:1359-60.
7. Focseneanu MA, Omurtag K, Ratts VS, Merritt DF. The auto-amputated adnexa: A review of findings in a pediatric population. *J Pediatr Adolesc Gynecol* 2013;26:305-13.
8. Sakala EP, Leon ZA, Rouse GA. Management of antenatally diagnosed fetal ovarian cysts. *Obstet Gynecol Surv* 1991;46:407-14.
9. Pujar VC, Joshi SS, Pujar YV, Dhumale HA. Role of laparoscopy in the management of neonatal ovarian cysts. *J Neonat Surg* 2014 3:16.
10. Kessler A, Nagar H, Graif M, Ben-Sira L, Miller E, Fisher D, et al. Percutaneous drainage as the treatment of choice for neonatal ovarian cysts. *Pediatr Radiol* 2006;36:954-8.
11. Abraham C. Management of adnexal cysts detected in the antenatal period: Review. *J Pediatr Neonatal Care* 2014;1:00010.
12. Bagolan P, Giorlandino C, Nahom A, Bilancioni E, Trucchi A, Gatti C, et al. The management of fetal ovarian cysts. *J Pediatr Surg* 2002;37:25-30.
13. Marinković S, Jokić R, Bukarica S, Mikić AN, Vucković N, Antić J. Surgical treatment of neonatal ovarian cysts. *Med Pregl* 2011;64:408-12.
14. Ozcan HN, Balci S, Ekinci S, Gunes A, Oguz B, Ciftci AO, et al. Imaging findings of fetal-neonatal ovarian cysts complicated with ovarian torsion and autoamputation. *Am J Roentgenol* 2015;205:185-9.
15. Schenkman L, Weiner TM, Phillips JD. Evolution of the surgical management of neonatal ovarian cysts: laparoscopic-assisted transumbilical extracorporeal ovarian cystectomy (LATEC). *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2008;18:635-40.
16. Puligandla PS, Laberge JM. Lethal outcome after percutaneous aspiration of a presumed ovarian cyst in a neonate. *Semin Pediatr Surg* 2009;18:119-21.
17. Uygun I, Aydogdu B, Okur MH, Otcu S. The first report of an intraperitoneal free-floating mass (an autoamputated ovary) causing an acute abdomen in a child. *Case Rep Surg* 2012;2012:615734.
18. Nizar K, Deutsch M, Filmer S, Weizman B, Beloosesky R, Weiner Z. Doppler studies of the ovarian venous blood flow in the diagnosis of adnexal torsion. *J Clin Ultrasound* 2009;37:436-9.