

Hidatidosis subcutánea primaria

Primary subcutaneous hydatid disease: a case report

Bárbara Analia Cordero¹, María Fernanda Sola¹, Marina Liliana Martínez¹, Marcelo Caldas¹ y Carmen Tatiana Alfaro¹

¹Hospital Nacional Profesor Alejandro Posadas, Buenos Aires, Argentina.

Los autores no tienen ningún conflicto de interés que declarar
Sin financiamiento

Recibido: 13 de octubre de 2022 / Aceptado: 2 de marzo de 2023

Resumen

La hidatidosis o equinococosis quística es una zoonosis parasitaria endémica causada por el estadio larvario del cestode *Echinococcus granulosus*. El hígado y el pulmón son los órganos con afección más frecuente. Su ubicación subcutánea es una entidad rara, poco descrita, y por ende un reto diagnóstico. Describimos el caso de una mujer, de 18 años de edad, procedente de un área endémica, que presentó un quiste hidatídico primario supraclavicular.

Palabras clave: Quiste hidatídico subcutáneo primario; región supraclavicular; equinococosis.

Abstract

Hydatid disease or cystic echinococcosis is an endemic parasitic zoonosis caused by the larval stage of the cestode *Echinococcus granulosus*, the liver and lung being the most frequently affected organs. Its subcutaneous location is a rare entity, little described, and therefore a diagnostic challenge. We describe the case of an 18-year-old woman from an endemic area who presented with a primary supraclavicular hydatid cyst.

Key words: Primary subcutaneous hydatid cyst; supraclavicular region; echinococcosis.

Introducción

La hidatidosis o equinococosis quística es una zoonosis causada por el estadio larvario del cestode *Echinococcus granulosus*. La hidatidosis es una patología grave, que se encuentra dentro del listado de la Organización Mundial de la Salud de enfermedades infecciosas desatendidas. El compromiso primario del tejido subcutáneo por la equinococosis quística es muy infrecuente, de ahí su dificultad en el diagnóstico y manejo, incluso en regiones endémicas. Los quistes hidatídicos de localización subcutánea y en tejidos blandos a menudo se confunden con tumores benignos¹.

Presentamos el caso clínico de una mujer joven que presentó un quiste hidatídico primario supraclavicular.

Caso clínico

Mujer de 18 años, con antecedentes de asma en la infancia, oriunda de una zona rural de Santiago del Estero, Argentina, que consultó por un año de evolución por la presencia de un aumento de volumen lateral del cuello y supraclavicular izquierdo, con dolor punzante intermitente, asociado a astenia y pérdida de peso involuntaria de aproximadamente cinco kilogramos, con apetito conservado.

Al examen físico tenía un peso de 67 kg, con talla 150 cm, y una tumoración subcutánea de 4 x 2,5 cm aproximadamente, duro-elástica, no adherida a planos profundos.

Se realizó una ecografía de tejidos blandos que informó una imagen anecoica, de bordes regulares, con refuerzo acústico posterior

Correspondencia a:

Barbara Analia Cordero
barbara.cordero05@gmail.com

de 34 x 20 x 27 mm, sin compromiso del plano muscular subyacente. También se solicitaron una ecografía abdominal y radiografía de tórax, ambas sin hallazgos patológicos.

Los estudios de laboratorio informaron un hemograma con hematocrito 40,7%, hemoglobina 13,9 g/dl, leucocitos 8.400/mm³ (neutrófilos 50,3%, linfocitos 40%, eosinófilos 2,4%), plaquetas 287.000/mm³, urea 0,67 g/l, creatinina 0,7 mg/dl y pruebas hepáticas normales. Las serologías para virus de inmunodeficiencia humana, hepatitis B y C fueron negativas.

Se realizó una punción aspiración con aguja fina (PAAF) de la masa subcutánea donde se drenaron 12 ml de líquido claro translúcido, con una citología compatible con un quiste hidatídico.

Se inició tratamiento con albendazol (400 mg cada 12 h) y se realizó seguimiento por infectología. Se indicó que los familiares acudieran al control de salud pertinente, lo que no ocurrió en mismo centro médico por encontrarse a una distancia mayor a 1.000 km desde su domicilio.

La paciente continuó con persistencia del dolor localizado y evolucionó con signos de hepatotoxicidad caracterizados por una elevación de las transaminasas GOT y GPT, interpretado como secundario al tratamiento instaurado, por lo que se decidió suspensión del antiparasitario. En una primera instancia el fármaco fue suspendido por 15 días, reiniciándolo a igual dosis por mejoría de los valores en el hepatograma, sin embargo, tuvo que ser suspendido nuevamente 30 días después por recidiva de la hepatotoxicidad.

Ante la alteración en las transaminasas hepáticas por el tratamiento sistémico antihelmíntico, se decidió tratamiento quirúrgico, realizándose la exéresis de la lesión sin complicaciones. El estudio macroscópico informó una estructura quística colapsada translúcida de 2,8 x 1,8 cm, con una pared de grosor de hasta 0,1 cm y dos fragmentos tisulares irregulares con tejido adiposo circundante de 1,7 x 1,5 y 1,3 x 1 cm. La microscopía mostró una capa laminada acelular eosinofílica, en relación a quistes con vesículas en su interior, numerosos núcleos y desarrollo de protoescólex (Figura 1 y 2). Alrededor se observó un proceso inflamatorio crónico, compatible con capa adventicia, conformado por linfocitos, plasmocitos, histiocitos epitelioides y células gigantes multinucleadas de tipo cuerpo extraño con formación de granulomas no caseificantes (Figura 3). La histopatología confirmó un quiste hidatídico subcutáneo.

La paciente no tuvo recidivas y se encontraba asintomática a los 12 meses del procedimiento quirúrgico, realizándose controles periódicos, y presentando pautas de cuidado e indicación de consulta inmediata ante sintomatología compatible con recidiva.

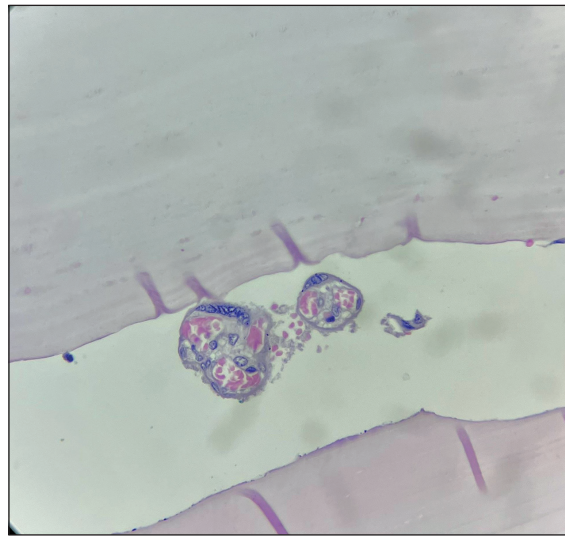


Figura 1. Vesículas proliferas con varios protoescólex. (HyE 40x).

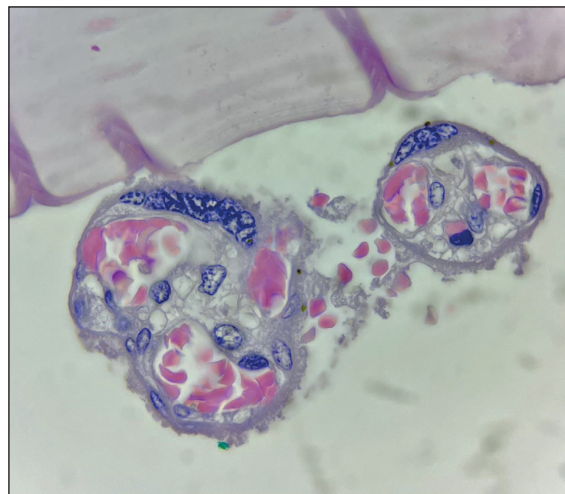


Figura 2. Vesículas proliferas con varios protoescólex. (HyE 100x).

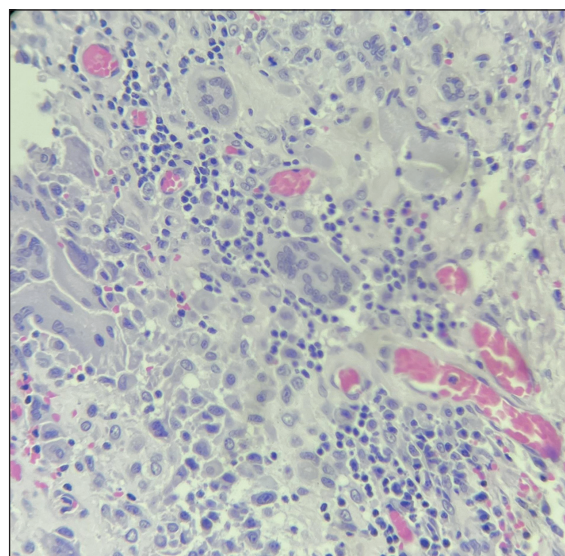


Figura 3. Proceso inflamatorio crónico con células gigantes multinucleadas de tipo cuerpo extraño (HyE 10x).

Discusión

El quiste hidatídico subcutáneo es una condición infrecuente, que debe sospecharse en todo paciente con la presencia de una masa móvil de tejidos blandos, indolora y de crecimiento lento, en un paciente proveniente de zonas endémicas o rurales. Representa sólo el 1,5% de todos los casos de hidatidosis (rango entre 0,6 y 1,6%)^{2,3}.

El mecanismo fisiopatológico no está claro, planteándose dos teorías al respecto: la contaminación directa a través de piel lesionada o la colonización subcutánea de un embrión hexacanto u oncosfera (proveniente de huevos ingeridos), después de pasar por el hígado y los pulmones. Suelen afectar las cinturas escapular y pelviana y las extremidades, posiblemente debido a la rica vascularización de dichas regiones^{2,3}. Al revisar la literatura especializada encontramos solo dos casos de localización similar¹.

La localización subcutánea se manifiesta en la mayoría de los casos como una masa quística de crecimiento lento, con piel suprayacente normal, y que alcanza un tamaño medio de 5,7 + 3,1 cm (2-15 cm). Una baja proporción de pacientes refieren dolor, al igual que nuestro caso, y signos de flogosis en la piel^{1,4}.

En la hidatidosis subcutánea no existen signos ni síntomas patognomónicos. La ausencia de manifestaciones clínicas, como dolor, y su carácter inespecífico explican al retraso diagnóstico^{1,5}. De acuerdo al motivo de consulta de la paciente, no se encontró relación causal entre la pérdida de peso transitoria y el diagnóstico, ya que no acusó falta de apetito o problemas para deglutir. Se constató una rápida recuperación del peso habitual en las consultas posteriores.

En cuanto al estudio con imágenes, se plantea inicialmente la ecografía, y en segundo lugar, la tomografía computada y resonancia magnética, los que son útiles como orientación diagnóstica y para determinar la relación con estructuras adyacentes^{2,4}. La clasificación de los hallazgos ecográficos de la OMS está indicada para la evaluación de quistes hidatídicos hepáticos, pero podría utilizarse y estandarizarse para los localizados en otros sitios.⁵ Del punto de vista ecográfico, los quistes hidatídicos pueden informarse como quistes univesiculares, con membranas desprendidas, multivesiculares, o quistes complejos. Los quistes subcutáneos se han descrito en imágenes como multiloculados con una frecuencia de 61% y uniloculados en un 33%³.

Los exámenes de laboratorio suelen ser normales, como el de nuestra paciente, y las serologías resultan útiles para el diagnóstico cuando son positivas, sin embargo, tienen baja sensibilidad². El caso presentado tenía el diagnóstico confirmado desde la primera evaluación por medio de la citología, por lo que no se solicitó serología.

La citología por PAAF se ha sumado como herramienta

diagnóstica, permitiendo observar membranas y escólex en el líquido del quiste¹. Los inconvenientes de este procedimiento son la reacción anafiláctica (complicación inmediata) y la siembra de escólices (complicación tardía)⁵.

Muchas veces, no existe sospecha en este diagnóstico al que finalmente se llega con la confirmación tanto por la citología como por la biopsia post-quirúrgica. Aunque no se han descrito complicaciones alérgicas en pacientes sometidos a PAAF o que se intervinieron sin diagnóstico prequirúrgico, en dos casos se planteó una asociación con recurrencia luego del procedimiento PAAF^{1,2,4,5}. Nuestra paciente no presentó complicaciones en relación a ninguno de los dos procedimientos invasores a los que fue sometida. En cambio, presentó uno de los efectos adversos más frecuentes en relación a la terapia con albendazol que es la hepatotoxicidad⁶.

La recomendación terapéutica en los quistes hidatídicos subcutáneos es la remoción quirúrgica completa. Además, se debe combinar con un antiparasitario posterior a la cirugía, lo que disminuiría el riesgo de siembra y recurrencia. En general, no se recomienda administrar albendazol previo a la cirugía, por riesgo de ablandamiento de las paredes quísticas y consiguiente ruptura del quiste durante la cirugía, con riesgo de filtración de líquido con escólices a los tejidos (siembra hidatídica).

Las técnicas quirúrgicas mínimamente invasivas percutáneas resultan prometedoras, aunque siempre deben ser seguidas de tratamiento farmacológico^{2,3,4,6}.

En general, el pronóstico es bueno y la recaída es muy infrecuente si el quiste fue extraído por completo. El diagnóstico de hidatidosis subcutánea siempre debe conducir a la búsqueda de compromiso hepático (ecografía) y pulmonar (radiografía de tórax).

El seguimiento debe ser individualizado^{2,4,6,7} y prolongado, ya que las recidivas pueden ser tardías. En nuestra paciente se ha planeado un seguimiento semestral indefinido con imágenes de control para descartar aparición de nuevos quistes.

Conclusión

La hidatidosis subcutánea primaria es una entidad infrecuente, presente principalmente en áreas endémicas. Se debe incluir dentro de los diagnósticos diferenciales en pacientes con presencia de masa en tejidos blandos. Como estudios complementarios se describen métodos por imágenes y serológicos, llegando al diagnóstico definitivo por citología o biopsia post-quirúrgica. El tratamiento de elección es la exéresis completa mediante técnica quirúrgica. Además, se recomienda la terapia complementaria con albendazol, por la eventual filtración de líquido hidatídico que pudo ocurrir previo a la cirugía, o durante el procedimiento quirúrgico.

Referencias bibliográficas

- 1.- Keser S H, Selek A, Ece D, Barisik C C, Sensu S, Gecmen GG, et al. Review of hydatid cyst with focus on cases with unusual locations. *Turk Patoloji Derg* 2017;33: 30-6. <https://doi.org/10.5146/tjpath.2016.01369>.
- 2.- Kayaalp C, Dirican A, Aydin C. Primary subcutaneous hydatid cysts: a review of 22 cases. *Int J Surg*. 2011; 9: 117-21. <https://doi.org/10.1016/j.ijssu.2010.10.009>.
- 3.- Özdemir M, Kavak R P, Kavak N, Akdur NC. Primary gluteal subcutaneous hydatid cyst. *IDCases* 2020; 19: e00719. <https://doi.org/10.1016/j.idcr.2020.e00719>.
- 4.- Moravvej H, Haghighatkah H R, Abdollahimajd F, Aref S. Primary subcutaneous hydatid cyst of the leg: An unusual location and review of the literature. *Indian J Dermatol Venereol Leprol* 2016; 82: 558-62. <https://doi.org/10.4103/0378-6323.182807>.
- 5.- Salamone G, Licari L, Randisi B, Falco N, Tutino R, Vaglica A, et al. Uncommon localizations of hydatid cyst. Review of the literature. *G Chir* 2016; 37: 180-5. <https://doi.org/10.11138/gchir/2016.37.4.180>.
- 6.- Enfermedades Infecciosas: Hidatidosis. Guía para el equipo de salud N.º 11. Ministerio de Salud, Presidencia de la Nación Argentina; 2012. 0000000797cnt-2012-03-29_hidatidosis-guia-medica.pdf.
- 7.- Belhassen-García M, Balboa Arregui Ó, Calabuig-Muñoz E, Carmena D, Esteban Velasco MC, Fuentes Gago M, et al. Executive Summary of the Consensus Statement of the Spanish Society of Infectious Diseases and Clinical Microbiology (SEIMC), the Spanish Society of Tropical Medicine and International Health (SEMTSI), the Spanish Association of Surgeons (AEC), the Spanish Society of Pneumology and Thoracic Surgery (SEPAR), the Spanish Society of Thoracic Surgery (SECT), the Spanish Society of Vascular and Interventional Radiology (SERVEI), and the Spanish Society of Paediatric Infectious Diseases (SEIP), on the Management of Cystic Echinococcosis. *Enferm Infecc Microbiol Clin (Engl Ed)* 2020; 38: 283-8. <https://doi.org/10.1016/j.eimc.2019.10.015>.