

Hallazgo Incidental de Tumor Neuroendocrino en Apéndice durante Exploración Laparoscópica por Endometriosis Profunda: Informe de Caso

<https://doi.org/10.32635/2176-9745.RBC.2025v71n3.5128ES>

Achado Incidental de Tumor Neuroendócrino de Apêndice durante Exploração Laparoscópica para Endometriose Profunda: Relato de Caso

Incidental Finding of Appendiceal Neuroendocrine Tumor during Laparoscopic Exploration for Deep Endometriosis: Case Report

Renan Martins Lopes¹; Levi Goyanna de Moura²; Gabriel Sampaio Feitosa³; Santino Alves da Silva Filho⁴; Danielle Calheiros Campelo Maia⁵; José Walter Feitosa Gomes⁶

RESUMEN

Introducción: La endometriosis es una de las enfermedades ginecológicas más prevalentes, afectando del 7 al 10% de las mujeres en edad reproductiva. Consiste en la presencia de glándulas endometriales y estroma fuera de la cavidad uterina, y la forma profunda es la más grave. Los tumores neuroendocrinos gastrointestinales son raros, pero se encuentran entre las neoplasias más comunes del apéndice cecal y siendo más frecuentes en mujeres. El objetivo de este artículo es describir un caso raro en el que, durante una videolaparoscopia por endometriosis profunda, se realizó un diagnóstico incidental de un tumor neuroendocrino en el apéndice. **Informe del caso:** Paciente femenina de 44 años, sometida a videolaparoscopia para el control de endometriosis profunda. Se decidió resecar los focos de endometriosis, junto con una apendicectomía, debido a un hallazgo intraoperatorio durante la exploración intestinal. La paciente ha estado estable en el posoperatorio, sin complicaciones. En el examen anatomopatológico del apéndice cecal, se identificó un tumor neuroendocrino bien diferenciado (grado 1), pT1, de 0,5 cm en su diámetro mayor, con márgenes libres y sin invasión linfovascular. **Conclusión:** Este caso refuerza la importancia de una evaluación completa de la cavidad peritoneal, incluyendo el apéndice, durante la laparoscopia en pacientes con endometriosis.

Palabras clave: Tumores Neuroendocrinos/cirugía; Endometriosis; Laparoscopia; Apendicectomía.

RESUMO

Introdução: A endometriose é uma das doenças ginecológicas mais prevalentes, afetando de 7% a 10% das mulheres em idade reprodutiva. Consiste na presença de glândulas endometriais e estroma fora da cavidade uterina, e a forma profunda é a mais grave. Os tumores neuroendócrinos gastrointestinais são raros, mas estão entre as neoplasias mais comuns do apêndice cecal, sendo mais comuns em mulheres. O objetivo deste artigo é descrever um caso raro no qual, com base na videolaparoscopia para endometriose profunda, foi feito o diagnóstico incidental de um tumor neuroendócrino no apêndice. **Relato do caso:** Paciente do sexo feminino, 44 anos, submetida à videolaparoscopia para controle de endometriose profunda. Optou-se pela ressecção dos focos de endometriose associados à apendicectomia em razão de um achado durante a exploração intestinal. O paciente apresentou-se estável no pós-operatório, sem complicações. No exame anatomopatológico (apêndice cecal), foi constatado um tumor neuroendócrino bem diferenciado (grau 1), pT1, medindo 0,5 cm em seu maior diâmetro, com margens livres, sem invasão linfovascular. **Conclusão:** Este caso reforça a importância de uma avaliação completa da cavidade peritoneal, incluindo o apêndice, durante a laparoscopia em pacientes com endometriose.

Palavras-chave: Tumores Neuroendócrinos/cirurgia; Endometriose; Laparoscopia; Apendicectomia.

ABSTRACT

Introduction: Endometriosis is one of the most prevalent gynecological diseases, affecting 7 to 10% of women at a reproductive age. It consists of endometrial glands and stroma growing outside the uterine cavity, the deepest is the most harmful. Gastrointestinal neuroendocrine tumors are rare, but they are one of the most common neoplasms of the cecal appendix, being more common in women. The objective of this article is to describe a rare case in which, during a videolaparoscopy for deep endometriosis, an incidental appendiceal neuroendocrine tumor was found. **Case report:** A 44-year-old female patient underwent a videolaparoscopy to control deep endometriosis. It was decided to perform a resection of endometriosis foci associated with appendectomy due to the finding during intestinal exploration. The patient was stable postoperatively with no complications. The anatomopathological examination (cecal appendix) revealed a well-differentiated neuroendocrine tumor (grade 1), pT1, measuring 0.5 cm in its largest diameter, with free margins, without lymphovascular invasion. **Conclusion:** This case reinforces the importance of a complete evaluation of the peritoneal cavity, including the appendix, during laparoscopy for patients with endometriosis.

Key words: Neuroendocrine Tumors/surgery; Endometriosis; Laparoscopy; Appendectomy.

¹Universidade Estadual do Ceará (Uece). Fortaleza (CE), Brasil. E-mail: renanmartins2018@gmail.com. Orcid iD: <https://orcid.org/0000-0002-2105-4820>

²Instituto Dr. José Frota (IJF). Fortaleza (CE), Brasil. E-mails: levigmoura@hotmail.com; jwalterfeitosa@yahoo.com.br. Orcid iD: <https://orcid.org/0009-0003-6223-4603>; Orcid iD: <https://orcid.org/0000-0002-7969-4927>

³Universidade Federal do Ceará (UFC). Fortaleza (CE), Brasil. E-mail: gabriel.sampaio@alu.ufc.br. Orcid iD: <https://orcid.org/0009-0003-0834-3366>

⁴Núcleo de Medicina Pélvica Feminina (Numpef). Fortaleza (CE), Brasil. E-mail: drsantinoalves@gmail.com. Orcid iD: <https://orcid.org/0009-0004-1854-7212>

⁵Pronutrir. Fortaleza (CE), Brasil. E-mail: oncologia.danielle@gmail.com. Orcid iD: <https://orcid.org/0009-0006-9915-0106>

Dirección para correspondencia: Renan Martins Lopes. Av. Dr. Silas Munguba, 1700 – Itaperi. Fortaleza (CE), Brasil. CEP 60714-903. E-mail: renanmartins2018@gmail.com



INTRODUCCIÓN

La endometriosis es definida por la presencia de glándulas endometriales y estroma fuera de la cavidad uterina. Es una enfermedad inflamatoria crónica que causa dolor e infertilidad en el 10-15% de las mujeres en edad reproductiva, pudiendo provocar otros síntomas como dismenorrea, sangrado uterino anormal, dispareunia, sangrado poscoital, síndrome del intestino irritable y enfermedad inflamatoria pélvica¹.

La endometriosis puede categorizarse en tres clasificaciones: endometriosis peritoneal, quistes endometriales ováricos (endometrioma) y endometriosis profunda (EP). La EP se define por lesiones que infiltran el peritoneo en más de 5 mm. La cirugía está indicada en tres situaciones: dolor refractario a las medicaciones, involucramiento ileal (riesgo de obstrucción intestinal), e involucramiento apendicular (riesgo de neoplasia)^{2,3}.

Por otro lado, los tumores neuroendocrinos (TNE) pueden desarrollarse en casi todos los órganos y pueden variar ampliamente en sus manifestaciones clínicas, morfología, genómica y pronóstico. Los TNE del apéndice normalmente surgen en la punta y la mayoría se descubre incidentalmente durante procedimientos quirúrgicos. Macroscópicamente, estas neoplasias son nódulos amarillados bien demarcados. Históricamente, se les considera tumores indolores y el término carcinoide se usa frecuentemente para los TNE del tracto gastrointestinal (TGI)⁴.

Aunque los TNE se consideren raros y de buen pronóstico, representan el segundo tipo de tumor gastrointestinal más común y hubo un aumento entre el 70 y el 133% en la incidencia de TNE apendiculares en los últimos diez años. El diagnóstico de TNE apendiculares generalmente se establece histológicamente y ocurre en el 0,16-2,3% de las apendicectomías^{5,6}.

Los TNE del apéndice afectan más comúnmente a mujeres entre 15 y 19 años y a hombres entre 20 y 29 años según algunos estudios. El pronóstico depende del estadio, grado, sitio primario y actividad mitótica. El grado de estos tumores se determina mediante el índice Ki67 y/o mitosis/*High Power Field*⁶. Adicionalmente, en una búsqueda en el PubMed usando los términos “*Neuroendocrine tumor*”, “*Appendix*” y “*Endometriosis*” sin restricción temporal, solo se encontraron siete manuscritos, destacando la rareza de la asociación.

El presente artículo fue aprobado por el Comité de Ética en Pesquisa, con el número de parecer 7.130.629 (CAAE: 81074124.0.0000.5047), de acuerdo con la Resolución n.º 466/2012⁷ del Consejo Nacional de Salud.

INFORME DEL CASO

Mujer, 44 años, enviada para seguimiento especializado debido a un cuadro de EP e infertilidad. Presentaba cuadro

de dispareunia de profundidad, dismenorrea, sangrado uterino anormal, dolor pélvico crónico (DPC) y alteraciones del hábito intestinal. En el examen físico, había dolor a la movilización del cuello uterino y a la palpación del septo rectovaginal. La paciente no tenía antecedentes de cirugías, etilismo o tabaquismo, pero tenía antecedentes familiares de diversas neoplasias, incluyendo mieloma múltiple, hepatocarcinoma, melanoma, cáncer de intestino y de sistema nervioso central.

En examen de ecografía transvaginal con preparación intestinal, se observaron focos sugerentes de endometriosis acarreado desplazamiento lateral del ovario derecho, debido a un quiste aneural de aproximadamente 3 cm y ovarios de tamaño normal, y focos acometiendo la pared anterior del recto, vagina y de la serosa uterina, además de adherencias pélvicas. Pasó por una intervención videolaparoscópica en mayo de 2022 para control de EP, y durante el procedimiento se encontraron gran cantidad de focos endometriales amoratados infiltrativos de 1-5 mm en trompas, ligamentos uterosacros, uréteres, vejiga, septo rectovaginal, diafragma derecho y apéndice, además de un endometrioma en el ovario derecho. Se optó por resecar los focos y, durante la exploración, se visualizó un nódulo amarillado y endurecido en el ápice del apéndice (Figura 1). Se decidió, entonces, por la realización de apendicectomía (Figura 2). La paciente tuvo una evolución estable en el posoperatorio durante los dos días de internación, sin complicaciones.



Figura 1. Nódulo amarillado en la punta del apéndice cecal

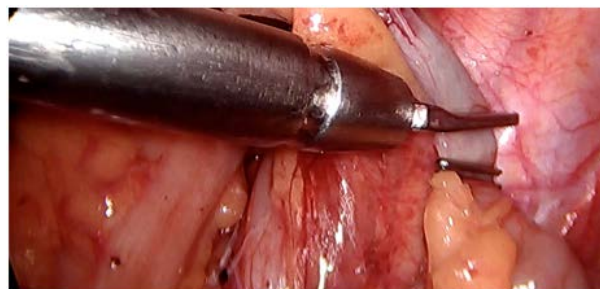


Figura 2. Colocación de clips para posterior apendicectomía laparoscópica

El análisis anatomopatológico del nódulo apendicular reveló un TNE bien diferenciado (Grado 1), por la clasificación de la Organización Mundial de la Salud (OMS), confirmado por estudio inmunohistoquímico (sinaptofisina positivo, cromogranina A positivo, CD56 positivo y Ki-67 positivo en el 1% de las células) (Figura 3), pT1, con 0,5 cm de diámetro máximo, localizado en la capa submucosa. Los márgenes quirúrgicos estaban libres y no había invasión linfovascular. De esta forma, no fue necesaria terapia adyuvante u otro enfoque quirúrgico.

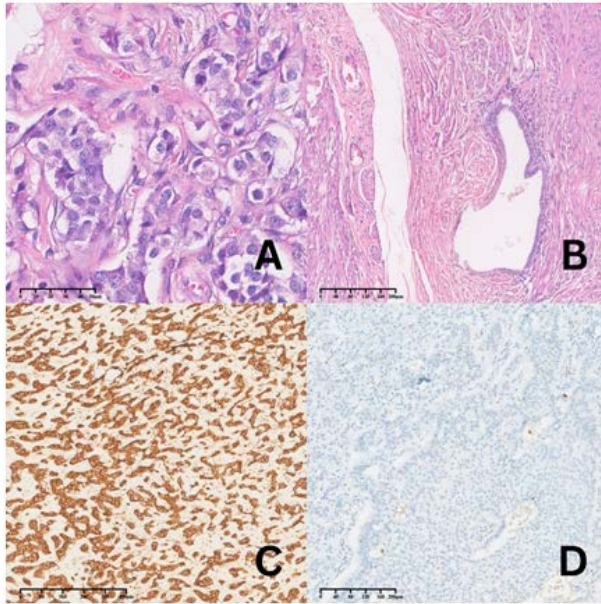


Figura 3. Células neoplásicas de fenotipo neuroendocrino con núcleos redondeados y de cromatina salpicada (A), implantes de endometriosis adyacentes a la neoplasia (B), marcación difusa para sinaptofisina (C), bajo índice proliferativo por el Ki-67 (D)

Además, posteriormente, la paciente pasó por una mamotomía izquierda para biopsia de un fibroadenoma hialinizado en septiembre de 2022 y por una tiroidectomía total en noviembre de 2022, por causa de un carcinoma papilar del subtipo folicular en tercio medio, con dimensiones de 0,8 x 0,5 x 0,4 cm y estadio pT1a.

Actualmente, la paciente está clínicamente estable, tres años después del diagnóstico de TNE, en seguimiento anual en dos hospitales terciarios, sin señales de recidiva, conforme con los exámenes de endoscopia digestiva alta, colonoscopia y tomografía computarizada realizados seis meses y un año después de la cirugía.

DISCUSIÓN

El presente caso presentó un cuadro clásico de señales y síntomas de EP con acometimiento del TGI y se envió a la paciente al tratamiento quirúrgico en el cual se

visualizó una lesión de apéndice. Dentro de la intervención quirúrgica de la EP, existen tres técnicas descritas en la literatura: el *shaving*, la remoción en disco y la resección de segmento intestinal, siendo el riesgo de fístula rectovaginal mayor en las dos últimas¹.

La evaluación prequirúrgica utilizando diversas técnicas de imagen (ecografía vaginal 3D, enema opaco con doble contraste y resonancia magnética) es, por lo tanto, esencial para definir la conducta quirúrgica. No obstante, es de consenso la necesidad de una completa evaluación de la cavidad peritoneal, incluyendo el apéndice, durante laparoscopia para EP. Ante la presencia de lesiones sospechosas, se indica la apendicectomía. En el caso en cuestión, la cirugía se basó en los hallazgos ecográficos, cuadro clínico y en la extensión de la endometriosis, sin necesidad de exámenes confirmatorios adicionales⁸.

Para este fin, un estudio estandarizó la técnica COPE (Correr por los Órganos Peritoneales en la Endometriosis) para evaluar y correlacionar señales y síntomas gastrointestinales y ginecológicos de la endometriosis y la localización de las lesiones en cada segmento del TGI. La técnica COPE implica una investigación sistemática de los órganos abdominales, siguiendo el estándar: 1) monitor posicionado inferiormente, cerca de los pies; 2) punción de 5 mm en el hipocondrio derecho; 3) uso de óptica de 30 grados; 4) posición de Trendelenburg con soportes para piernas; 5) inicio del análisis del intestino delgado por el íleo terminal en dirección hacia el ángulo duodenoyeyunal⁹.

En el estudio con la descripción de la técnica COPE con mujeres con diagnóstico de endometriosis, se observó acometimiento por la enfermedad en el TGI en el 70% de los 40 casos de la muestra. Se demostró una nítida relación entre señales y síntomas del TGI y lesiones en el rectosigmoide e íleo. En el apéndice, se observó que se logran detectar lesiones solamente si la técnica COPE fuere correctamente aplicada, pues no hubo diferencia entre pacientes con y sin señales y síntomas del TGI dentro de los TNE. La COPE fue utilizada en el presente caso⁹.

Con base en un estudio en los archivos de patología de una institución israelí, se observó que, en 8162 apendicectomías, se realizó el diagnóstico histopatológico de 153 tumores, de los cuales 57 (37,3%) eran TNE, 35 (22,9%) eran adenomas quísticos mucinosos y 34 (22,2%) metástasis de cáncer de ovario¹⁰. Los TNE son los tumores más comunes del apéndice, comprendiendo cerca del 32 al 57% de los casos, pero en general no presentan síntomas específicos. La incidencia anual varía en la literatura, pero gira alrededor de 0,4-0,6 por cada 100 000 individuos¹¹. Además, el apéndice es el tercer lugar más común (16,7%) de TNE en el TGI, perdiendo para el intestino delgado y recto, respectivamente¹².

Una serie de cinco casos con diagnósticos preoperatorios de DPC describe a pacientes que, durante procedimientos quirúrgicos ginecológicos, se les descubrió TNE apendiculares. Cuatro pacientes tenían endometriosis después de la revisión histopatológica y una fue confirmada con un teratoma quístico maduro, reforzando la importancia de la investigación del DPC y la posibilidad de hallazgos incidentales durante procedimientos ginecológicos¹³. A pesar de la presencia de casos semejantes al presente en la literatura, una revisión sistemática identificó que las tasas de TNE son semejantes en individuos con endometriosis y en la población general¹⁴.

La perspectiva para TNE de apéndice es generalmente favorable, teniendo al tamaño como un factor crucial para el pronóstico. El índice Ki-67 también es relevante, con estudios mostrando que un alto índice Ki-67 está asociado a una reducción en la sobrevida¹⁵. Un metaanálisis mostró que la sobrevida en cinco años para pacientes con TNE gastroenteropancreáticos fue del 89% para grado 1 (Ki-67 $\leq 2\%$) y del 70% para grado 2 (Ki-67 3-20%). Considerando un punto de corte del 5%, la sobrevida fue del 89% para Ki-67 $\leq 5\%$ y del 51% para Ki-67 entre el 5-20%. Con un Ki-67 del 1%, la evolución clínica de la paciente hasta el momento puede estar alineada a esta expectativa favorable¹⁶.

Las orientaciones de la Sociedad Norteamericana de Neuroendocrinología (NANETS) recomiendan hemicolectomía derecha para tumores apendiculares localizados en la base o con más de 2 cm, o en casos de invasión linfovascular o en el tejido adiposo mesoapendicular, metástasis ganglionares, o tumores de grado intermedio o alto. Para tumores entre 1 cm y 2 cm, no hay consenso sobre el tratamiento debido a la falta de estudios. Tumores menores de 1 cm requieren seguimiento cercano, con consultas cada 3-6 meses después de la resección curativa, seguidas de visitas anuales durante los próximos siete años. Para tumores de hasta 1 cm, como el del caso (0,5 cm, bien diferenciado, sin invasión), la apendicectomía aislada es suficiente. El seguimiento del presente caso fue anual, sin recurrencia en tres años. El manejo siguió las orientaciones de la NANETS, con monitoreo adecuado y desenlace favorable¹⁶.

CONCLUSIÓN

Este caso refuerza la importancia de una completa evaluación de la cavidad peritoneal, incluyendo el apéndice, durante la paroscopia para pacientes con EP. El presente caso enfatiza la necesidad de un enfoque cuidadoso e individualizado de los TNE y refuerza la indicación de apendicectomía cuando el apéndice es acometido en el contexto de la EP. Además, se destaca

la importancia de la realización de más estudios que sistematicen la evaluación y el rastreo de estas lesiones en los contextos de la cirugía digestiva, coloproctología y ginecología.

APORTES

Todos los autores contribuyeron substancialmente en la concepción y en el planeamiento del estudio; en la obtención, análisis e interpretación de los datos; en la redacción y revisión crítica; y aprobaron la versión final a publicarse.

DECLARACIÓN DE CONFLICTO DE INTERESES

Nada a declarar.

FUENTES DE FINANCIAMIENTO

No hay.

REFERENCIAS

1. Dunselman GA, Vermeulen N, Becker C, et al. ESHRE guideline: management of women with endometriosis. *Hum Reprod.* 2014;29(3):400-12
2. Koninckx PR, Ussia A, Adamyan L. Deep endometriosis: definition, diagnosis, and treatment. *Fertil Steril.* 2012;98(3):564-71. doi: <https://doi.org/10.1016/j.fertnstert.2012.07.1061>
3. Moulder JK, Siedhoff MT, Melvin KL, et al. Risk of appendiceal endometriosis among women with deep-infiltrating endometriosis. *Int J Gynaecol Obstet.* 2017;139(2):149-54
4. Assarzadegan N, Montgomery E. What is New in 2019 World Health Organization (WHO) Classification of Tumors of the Digestive System: review of selected updates on neuroendocrine neoplasms, appendiceal tumors, and molecular testing. *Arch Pathol Amp Lab Med.* 2020;145(6):664-77. doi: <https://doi.org/10.5858/arpa.2019-0665-ra>
5. Morris D, Tsilimigras DI, Vagios S, et al. Neuroendocrine neoplasms of the appendix: a review of the literature. *Anticancer Res.* 2018;38(2):601-11
6. Cuthbertson DJ, Shankland R, Srirajaskanthan R. Diagnosis and management of neuroendocrine tumours. *Clin Med.* 2023;23(2):119-24. doi: <https://doi.org/10.7861/clinmed.2023-0044>
7. Nisolle M, Brichant G, Tebache L. Choosing the right technique for deep endometriosis. *Best Pract Amp Res Clin Obstet Amp Gynaecol.* 2019;59:56-65. doi: <https://doi.org/10.1016/j.bpobgyn.2019.01.010>



8. Sagae UE, Lopasso F, Abrão MS, et al. Endometriose do trato gastrointestinal: correlações clínicas e laparoscópicas. *Rev Bras Coloproctologia*. 2007;27(4):423-31
9. Rosenblum RC, Klein N, Paran H, et al. Appendiceal tumor incidence and an in-depth look at appendiceal neuroendocrine neoplasm in a cohort of 8,162 appendectomies: Full dataset. *Data Brief*. 2020;33:106456. doi: <https://doi.org/10.1016/j.dib.2020.106456>
10. Ellis L, Shale MJ, Coleman MP. Carcinoid tumors of the gastrointestinal tract: trends in incidence in England since 1971. *Am J Gastroenterol*. 2010;105(12):2563-9
11. Süleyman M. Incidental presentation of appendix neuroendocrine tumor: long-term results from a single institution. *Turk J Trauma Emerg Surg*. 2023;972-7
12. Altshuler PC, Schultze PM. Diagnosis of appendiceal neuroendocrine tumors following incidental appendectomy during benign gynecologic laparoscopic surgeries: a case series. *Cureus*. 2023;15(6):e41135. doi: <https://doi.org/10.7759/cureus.41135>
13. Villaescusa M, Andres MP, Amaral AC, et al. Endometriosis and its relation with carcinoid tumor of the appendix: a systematic review. *Minerva Obstet Gynecol*. 2021;73(5):606-13 doi: <https://doi.org/10.23736/s2724-606x.21.04792-4>
14. Galanopoulos M, Toumpanakis C. The problem of appendiceal carcinoids. *Endocrinol Metab Clin North Am*. 2018;47(3):661-69
15. Richards-Taylor S, Ewings SM, Jaynes E, et al. The assessment of Ki-67 as a prognostic marker in neuroendocrine tumours: a systematic review and meta-analysis. *J Clin Pathol*. 2016;69(7):612-8.
16. Kunz PL, Reidy-Lagunes D, Anthony LB, et al. Consensus guidelines for the management and treatment of neuroendocrine tumors. *Pancreas*. 2013;42(4):557-77

Recebido em 10/2/2025

Aprovado em 19/3/2025

