



Revista Portuguesa  
de

# irurgia

II Série • N.º 45 • Novembro 2019

ISSN 1646-6918

Órgão Oficial da Sociedade Portuguesa de Cirurgia





SOCIEDADE PORTUGUESA DE CIRURGIA

Revista Portuguesa de Cirurgia

II Série • n.º 45 • Novembro 2019

**Editor Chefe**

RENATO BESSA DE MELO  
*Centro Hospitalar Universitário São João*

**Editores Associados**

ISABEL NASCIMENTO  
*Hospital Garcia de Orta*

MARTA GUIMARÃES  
*Centro Hospitalar de Entre Douro e Vouga*

NUNO RAMA  
*Centro Hospitalar de Leiria*

**Editores Eméritos**

JOSÉ MANUEL SCHIAPPA  
*Hospital CUF Infante Santo*

JORGE PENEDO  
*Centro Hospitalar de Lisboa Central*

VITOR RIBEIRO  
*Hospital Privado da Boa Nova, Matosinhos*

**Conselho Científico**

A. ARAÚJO TEIXEIRA

EDUARDO BARROSO

FERNANDO JOSÉ OLIVEIRA

FRANCISCO OLIVEIRA MARTINS

GIL GONÇALVES

HENRIQUE BICHA CASTELO

JOÃO GÍRIA

JOÃO PATRÍCIO

JORGE MACIEL

JORGE SANTOS BESSA

JÚLIO LEITE

JOSÉ GUIMARÃES DOS SANTOS

JOSÉ LUÍS RAMOS DIAS

NUNO ABECASSIS

PEDRO MONIZ PEREIRA

RODRIGO COSTA E SILVA

**Editores Internacionais**

Abe Fingerhut – França

Alessandro Gronchi – Itália

Angelita Habr Gama – Brasil

Bijan Ghavami – Suíça

Cavit Avci – Turquia

Edmond Estour – França

Florentino Cardoso – Brasil

Guy Bernard Cadière – Bélgica

Henri Bismuth – França

Irinel Popescu – Roménia

Joaquim Gama Rodrigues – Brasil

Joseph Amaral – USA

Juan Santiago Azagra – Luxemburgo

Mario Morino – Itália

Masatochi Makuuchi – Japão

Mauricio Lynn – EUA

Michael Sugrue – Irlanda

Miroslav Milicevic – Rép. Sérvia

Miroslav Ryska – Rép. Checa

Mohamed Abdel Wahab – Egípto

Nagy Habib – Reino Unido

Rainer Engemann – Alemanha

Robrecht Van Hee – Bélgica

Samuel Shuchleib – México

Sandro Rizoli – Canadá

Selman Uranues – Áustria

ÓRGÃO OFICIAL DA SOCIEDADE PORTUGUESA DE CIRURGIA

**Edição e Propriedade**

Sociedade Portuguesa de Cirurgia  
Rua Xavier Cordeiro, 30 – 1000-296 Lisboa  
Tels.: 218 479 225/6, Fax: 218 479 227  
secretariado.revista@spcir.com

**Redacção e Publicidade**

SPC  
Depósito Legal 255701/07  
ISSN 1646-6918 (print)  
ISSN 2183-1165 (electronic)

**Composição**

Sociedade Portuguesa de Cirurgia  
secretariado.revista@spcir.com

# Contents

<b>PORTUGUESE SOCIETY OF SURGERY (SPC) PAGE</b>	
<i>New challenges for the portuguese surgical society</i> . . . . .	5
<b>Gil Gonçalves</b>	
<b>EDITORS PAGE</b> . . . . .	7
<b>Os Editores</b>	
<b>CLINICAL CASES</b>	
<i>Mesenteric cyst: incidental finding</i> . . . . .	9
<b>Carla Menezes, Carolina Morgado, David Andrade, Rosário Roque, Carlos Santa Rita</b>	
<i>Giant Ovaric Cyst – a Rare Finding</i> . . . . .	13
<b>João M. Carvas, Alexandra Carrazedo, Diego Perez, Lília Meireles, David Tente, Hermínia Martins</b>	
<i>Littré’s hernia – a case of a Meckel’s diverticulum in a strangulated femoral hernia and literature review</i> . . . . .	17
<b>Joana S. Moura, André Vinha, Sofia Jardim Neves, Hugo Gameiro, Manuel Pinto Ferreira</b>	
<i>Papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst – Case report and literature review</i> . . . . .	25
<b>Florinda Cardoso, Alexandre Alves, Isabel Caldas, Jessica Neves, Mário Nora</b>	
<i>Gut mediated syncope</i> . . . . .	31
<b>Pedro Azevedo, Marta Custódio, Carolina Sequeira, Anabela Salgueiro Marques</b>	
<b>SURGERY IN PICTURES</b>	
<i>Testicular rupture after sports injury</i> . . . . .	37
<b>Margarida Manso, João Silva, Francisco Cruz</b>	
<b>OPINION PAPER</b>	
<i>The Error in Medicine</i> . . . . .	41
<b>Carlos M. Costa Almeida</b>	



# Índice

<b>PÁGINA DA SOCIEDADE PORTUGUESA DE CIRURGIA (SPC)</b>	
<i>Novos desafios para a Sociedade Portuguesa de Cirurgia</i> . . . . .	5
<b>Gil Gonçalves</b>	
<b>PÁGINA DOS EDITORES</b> . . . . .	7
<b>Os Editores</b>	
<b>CASOS CLÍNICOS</b>	
<i>Quisto do mesentério: achado incidental</i> . . . . .	9
<b>Carla Menezes, Carolina Morgado, David Andrade, Rosário Roque, Carlos Santa Rita</b>	
<i>Quisto Ovárico Gigante – um Achado Raro</i> . . . . .	13
<b>João M. Carvas, Alexandra Carrazedo, Diego Perez, Lília Meireles, David Tente, Herminia Martins</b>	
<i>Hérnia de Littré – a propósito de um caso clínico de um divertículo de Meckel numa hérnia femoral estrangulada</i> . . . . .	17
<b>Joana S. Moura, André Vinha, Sofia Jardim Neves, Hugo Gameiro, Manuel Pinto Ferreira</b>	
<i>Carcinoma papilar do canal tireoglosso – Relato de caso e revisão da literatura</i> . . . . .	25
<b>Florinda Cardoso, Alexandre Alves, Isabel Caldas, Jessica Neves, Mário Nora</b>	
<i>Síncope de causa intestinal</i> . . . . .	31
<b>Pedro Azevedo, Marta Custódio, Carolina Sequeira, Anabela Salgueiro Marques</b>	
<b>CIRURGIA EM IMAGENS</b>	
<i>Ruptura testicular associada a lesão desportiva</i> . . . . .	37
<b>Margarida Manso, João Silva, Francisco Cruz</b>	
<b>ARTIGO DE OPINIÃO</b>	
<i>O Erro em Medicina</i> . . . . .	41
<b>Carlos M. Costa Almeida</b>	



# Indexações da Revista Portuguesa de Cirurgia



Journals for Free



*Index Copernicus*



# Página da Sociedade Portuguesa de Cirurgia

*Gil Gonçalves*  
Secretário Geral

## Novos desafios para a Sociedade Portuguesa de Cirurgia

### *New challenges for the portuguese surgical society*

A Revista Portuguesa de Cirurgia volta a ser publicada! Com novo corpo Editorial, espera-se que possa contribuir para a divulgação da produção científica pelos Cirurgiões e Internos.

A Sociedade Portuguesa de Cirurgia tem por objetivo principal a promoção da formação na área da cirurgia geral em Portugal: dos Especialistas e Internos em Formação Específica.

O acesso ao saber e ao conhecimento foram disponibilizados como nunca nas duas últimas décadas, pelo que se torna mais fácil a aquisição de competências nas diversas áreas. Nem tudo é informação credível, pelo que a filtragem em muitas situações é complexa e a sua colocação na prática perigosa para os doentes. Disto resulta a necessidade de fomentar a boa formação em que as Sociedades Científicas, a Ordem dos Médicos, a Indústria Farmacêutica e de Dispositivos, o Ministério da Saúde e as Unidades de Saúde Privadas têm de ter papel determinante.

A SPCirurgia tem de assumir a sua quota parte de responsabilidade nesta vertente. O aconselhamento da Tutela e da Ordem dos Médicos, a definição dos padrões de qualidade da formação, a organização e promoção de formação creditada e o estímulo da publicação, são desígnios que têm de ser atingidos.

No último ano têm sido dados passos importantes na preparação do propósito da SPCir.

As reuniões com as diferentes direções do Colégio de Cirurgia da Ordem dos Médicos, permitiram introduzir na proposta de regulamento do internato Médico alterações tendentes a melhorar o processo formativo, com introdução de frequência de formação obrigatória creditada, com formato de registo curricular que permita avaliação contínua, com modelo de avaliação renovado que permita uma decisão mais objetiva e equilibrada. A formação de caráter obrigatório creditada, direciona para a SPCir a elaboração de um calendário formativo desenhado para o Internato, **mas em que os Especialistas deverão ter participação (como formadores, claro, e como formandos)**, mesmo que o legislador a não considere como tal. A creditação deste programa pelo



Colégio da OM e pela SPCir, obriga a conteúdos atualizados no formato de *e learning*, cursos teórico práticos, seminários, *perceptorship*, congressos. A escolha dos formadores ou entidades formadoras deverá obedecer a critérios rigorosos, em que a direção e capítulos da SPCir terão papel decisivo. Recentemente foi solicitado a todos os diretores de serviço a designação de elementos de ligação nas várias áreas da cirurgia geral, bem como, a informação de todas as propostas de organização de eventos formativos. Este programa só poderá ser concretizado com o contributo dos cirurgiões portugueses mais atualizados e dispostos a aderir a este desafio, centrando nos diversos serviços de cirurgia geral esta capacidade de potenciar e organizar formação.

A formação sendo obrigatória, deverá ser a custos moderados. Os formandos terão que custear numa percentagem equilibrada esta formação, devendo os formadores ser compensados pelo tempo gasto na organização e lecionamento.

O papel da tutela na formação não se pode limitar a pagar o vencimento mensal ao Interno. Além de reduzido, o interno produz um trabalho árduo muito importante e indispensável no SNS. Terá que existir por parte das Instituições onde trabalham verba que permita um co-pagamento da sua formação e aí sim, poder ser possível definir um compromisso temporal para a sua manutenção no SNS após a conclusão do Internato.

A SPCir deverá ocupar uma posição importante na discussão com a Indústria de Dispositivos e Medicamentos e incluir os hospitais Privados Portugueses (já iniciados contactos recentemente, com resposta positiva) na definição de formas de financiamento, de cedência de instalações e *Know how* (em alguns casos já existente e desenvolvido). Parcerias com Universidades deverão ser discutidas, desenvolvidas e finalizadas. O incremento da investigação clínica e laboratorial tem de ser um objetivo. As parcerias com as Universidades terão aqui um patamar importante de compromisso.

Os capítulos da SPC têm de ser proativos gerindo grupos de trabalho nas diversas áreas da cirurgia, que permitam avançar neste sentido. As propostas de trabalho devem ser apresentadas, aprovadas e colocadas na prática. Os registos informáticos necessários têm de ser desenhados e a SPC deverá disponibilizar essas ferramentas. O compromisso tem de ser uma palavra no vocabulário dos elementos da direção e dos capítulos, e com este exemplo, alavancar os serviços e os cirurgiões. A Revista Portuguesa de Cirurgia, órgão da SPC, deverá servir estes propósitos, promovendo a sua qualidade e grau de impacto na produção científica mundial.

A SPCir terá que ter um rumo e esta é a direção proposta. O compromisso das futuras direções com este desenho será obrigatório! A homogeneidade de trabalho das futuras direções para que se atinjam estes objetivos, é fundamental para a recolocação da SPCir no centro da definição das boas práticas, da formação, da promoção da investigação e publicação.

Novembro de 2019

*Correspondência:*

GIL GONÇALVES

e-mail: gjl8goncalves@gmail.com



Gil Gonçalves

# Editorial

Caros colegas,

É com um misto de orgulho e apreensão que aceitamos o desafio para liderar o processo editorial da Revista Portuguesa de Cirurgia. Orgulho por ser escolhido para a missão de promover a cirurgia portuguesa. Apreensão pelos vários obstáculos que se apresentam para levar esta tarefa a bom porto. A vontade de poder contribuir para a promoção da Revista fez aceitar este convite.

A Revista Portuguesa de Cirurgia deve ser antes do mais o órgão de promoção científica da comunidade cirúrgica portuguesa. A colaboração de todos é fundamental para podermos publicar trabalhos de mérito. O papel dos Editores e Conselho Editorial será o de promover uma arbitragem célere que promova a publicação de artigos de qualidade. Podem contar com o empenho para uma decisão rápida sobre a publicação dos trabalhos submetidos. Da comunidade cirúrgica esperamos a submissão de trabalhos que possam promover a cirurgia, os seus autores e por arrasto a Revista Portuguesa de Cirurgia.

Papel fundamental, que não pode ser esquecido, e para o qual é necessário um empenho de toda a comunidade cirúrgica é o dos revisores. Um dos maiores problemas e obstáculos para o desenvolvimento da Revista tem sido o atraso na resposta por parte dos revisores propostos pelo Corpo Editorial. Todos temos alguma responsabilidade neste panorama. O corpo de revisores de uma revista constitui uma peça-chave e elemento inevitável de qualquer processo editorial que aspire alcançar a excelência. São os revisores os responsáveis por avaliar a pertinência e relevância das questões de investigação apresentadas, metodologia, contribuição dos resultados para a criação de conhecimento, procedimentos éticos e respeito pela propriedade intelectual, evitando plágios e fraudes. O objetivo dos revisores não é identificar motivos para rejeição ou correções ortográficas e gramaticais pontuais. O papel dos revisores assenta, pelo contrario, em dois objetivos que se complementam: primeiro, ajudar os editores na seleção dos trabalhos a publicar na revista, e, segundo, auxiliar os autores a melhorar a qualidade dos seus trabalhos. A revisão pelos pares constitui um elemento fundamental na legitimação do conhecimento gerado contribuindo para o progresso da ciência.

Só com o empenho de TODOS – Editores, Autores, Revisores – é possível vencer este desafio.

*Correspondência:*

RENATO BESSA DE MELO

e-mail: rbmelo@med.up.pt





# Quisto do mesentério: achado incidental

## Mesenteric cyst: incidental finding

Carla Menezes<sup>1</sup>, Carolina Morgado<sup>2</sup>, David Andrade<sup>3</sup>, Rosário Roque<sup>4</sup>, Carlos Santa Rita<sup>5</sup>

<sup>1</sup> Interna do Complementar de Cirurgia Geral do Centro Hospitalar do Oeste-Unidade de Torres Vedras a realizar estágio de Cirurgia Geral no Serviço de Cirurgia do Hospital Curry Cabral – Centro Hospitalar Lisboa Central

<sup>2</sup> Assistente Hospitalar de Cirurgia Geral do Centro Hospitalar Lisboa Central

<sup>3</sup> Assistente Graduado de Cirurgia Geral do Centro Hospitalar Lisboa Central

<sup>4</sup> Chefe de Serviço de Cirurgia Geral do Centro Hospitalar do Oeste-Unidade de Torres Vedras

<sup>5</sup> Chefe de Serviço de Cirurgia Geral, Director do Serviço de Cirurgia do Centro Hospitalar do Oeste

### RESUMO

Os quistos do mesentério são tumores intra-abdominais benignos raros. Podem manifestar-se em qualquer faixa etária, no entanto, cerca de 33% manifestam-se em crianças com menos de 15 anos. Na maioria dos casos são assintomáticos e o seu diagnóstico, frequentemente, é um achado incidental. Embora a etiologia dos quistos seja desconhecida, várias são as teorias propostas para explicar a sua formação. O tratamento é cirúrgico e consiste na excisão completa do quisto. O prognóstico é bom e a taxa de recidiva é baixa. Os autores reportam o caso de um doente portador de um quisto do mesentério ressecado por laparotomia.

**Palavras-chave:** *Quisto do mesentério, Tumor intra-abdominal raro.*

### ABSTRACT

Mesenteric cysts are rare benign intra-abdominal tumours. They occur in patients any age, approximately one-third of cases occur in children younger than 15 years. They are generally free of symptoms and incidentally found. The aetiology of such cysts remains unknown but several theories regarding their development exist. The treatment is based on cyst resection. The prognosis is usually good and recurrence is rare. We report a case of mesenteric cyst treated by laparotomy.

**Keywords:** *Mesenteric cyst, Rare intra-abdominal tumour.*

### CASO CLÍNICO

Homem de 75 anos, que recorre ao Serviço de Urgência por dor abdominal contínua, generalizada, sem irradiação, com 12 horas de evolução e com aumento progressivo de intensidade. A dor não melhorava com analgésicos comuns e associava-se a

obstipação e escassez de emissão de gases. Sem história de febre, perda ponderal ou perdas hemáticas visíveis. Apresentava antecedentes cirúrgicos de hernioplastia inguinal e epigástrica.

À admissão, clínica e hemodinamicamente estável, destacando-se ao exame objetivo um abdómen moderadamente distendido, pouco timpanizado,



doloroso à palpação nos quadrantes inferiores, sem massas palpáveis e sem sinais de irritação peritoneal. O estudo analítico não evidenciava alterações.

A tomografia computadorizada (TC) (Fig. 1) revelou rotação dos vasos mesentéricos na transição abdominopélvica, associada a formação com densidade hídrica na raiz do mesentério com 9,5x5x6,5 cm.



FIGURA 1 – TC abdominopélvica evidenciando formação quística com 9 cm de diâmetro no mesentério, condicionando compressão de ansas de intestino delgado.

Tendo em conta o quadro clínico e os achados imagiológicos foi proposta e aceite intervenção cirúrgica urgente. Na laparotomia exploradora (Fig. 2) observou-se formação quística com aproximadamente 10 cm de diâmetro, de consistência flutuante e cor amarelada, localizada no mesentério e adjacente a ansa ileal. Realizou-se ressecção segmentar do mesentério contendo o quisto e do segmento do íleon correspondente.

O pós-operatório foi complicado de evisceração ao 8º dia e de infeção da ferida operatória com isolamento de *S. aureus meticilina-resistente*. Ao 23º dia pós-operatório teve alta para o domicílio.

O estudo anatomopatológico revelou tratar-se de um linfangioma quístico/quisto quiloso com cerca de 9 cm, multiloculado.

O doente encontra-se assintomático e sem evidência de recidiva 3 meses após a ressecção cirúrgica.



FIGURA 2 – Imagem per-operatória: quisto do mesentério com ansa ileal adjacente.

## DISCUSSÃO

Os quistos do mesentério são uma condição cirúrgica rara presente em 1:105 00-20000 adultos<sup>1,2</sup>.

Manifestam-se em qualquer faixa etária, contudo 33% são diagnosticados em menores de 15 anos de idade<sup>3</sup>. Verifica-se um predomínio às outras formações quísticas no sexo feminino e na quarta década de vida. Os linfangiomas, contrariamente, são mais frequentes na primeira década de vida e no sexo masculino.



Esta entidade clínica foi descrita pela primeira vez em 1507 por Benevieni (anatomista italiano) e tratada cirurgicamente, com sucesso, por Tillaux em 1880<sup>4,5</sup>.

Os quistos mesentéricos são lesões quísticas localizadas entre os folhetos mesentéricos. Podem ter qualquer localização, desde o duodeno até ao reto, contudo são mais frequentes no mesentério do intestino delgado (60%), mesocólon (24%) e retroperitoneu (14.5%)<sup>6</sup>. Podem ser simples ou múltiplos, uniloculados ou multiloculados, podem conter líquido seroso, quiloso, hemorrágico ou purulento e o seu tamanho é variável<sup>6</sup>. Os quistos quilosos são mais frequentes no mesentério do intestino delgado e os quistos serosos no mesocólon.

Várias são as hipóteses existentes para explicar a etiologia dos quistos mesentéricos: proliferação benigna de linfáticos ectópicos que não possuem comunicações com o sistema linfático normal<sup>7</sup>; obstrução linfática secundária a traumatismo, infeção ou neoplasia<sup>8</sup>; falência da junção embrionária entre o sistema linfático e o sistema venoso; degeneração dos gânglios linfáticos.

O sinal de Tillaux é patognomónico<sup>9</sup> e os sintomas mais comuns são: dor abdominal (82%), náuseas e vómitos (45%), obstipação (27%) e diarreia (6%)<sup>6</sup>. As manifestações clínicas estão relacionadas com o tamanho, localização e possíveis complicações do quisto

(torção, obstrução intestinal, hemorragia, infeção e ruptura traumática).

O diagnóstico diferencial clínico deve ser feito com entidades como o quisto do ovário; pseudo-quisto pancreático; tumores retroperitoneais pediculados; leiomiomas uterinos pediculados; invaginação intestinal; apendicite aguda com abscesso e o histológico com o linfangioma e mesotelioma<sup>4,9,10</sup>.

Tendo em conta a frequente ausência de clínica e a sua inespecificidade quando presente, o diagnóstico pré-operatório é raro. Atualmente, a ecografia/tomografia computadorizada/ressonância magnética, ao definirem a natureza, o tamanho, a localização e a relação da lesão com os órgãos adjacentes, possibilitam alcançar um diagnóstico provisório pré-operatório.

O tratamento de eleição é a excisão completa da massa quística, realizada de preferência por via laparoscópica, permitindo a confirmação diagnóstica, evitando a recidiva, transformação maligna e complicações<sup>6,11</sup>. A ressecção completa pode implicar ressecção intestinal.

A transformação maligna é rara, 3-4% dos casos, e a recidiva pode chegar aos 10% quando a excisão é incompleta<sup>3,9,10</sup>. O prognóstico é bom, com remissão total dos sintomas. O seguimento pós-operatório pode ser feito com ecografias periódicas, por um período de 3 a 48 meses, uma vez que a recidiva é rara e geralmente precoce<sup>12</sup>.



## REFERÊNCIAS

1. Case report: elective removal of a large mesenteric cyst—our approach. Kasra Razi, Obaida Al-Asaad, and Rao Milind. *Journal of Surgical Case Reports*, 2017;3, 1–3.
2. Kwan E, Lau H, Yuen WK. Laparoscopic resection of a mesenteric cyst. *Gastrointest Endosc* 2004;59:154–6.
3. Regina LT, Bolina GM, Alberti LR, Petroianu A. Tratamento de cisto mesentérico quiloso. *Arq Bras Cir Dig*. 2010; 23(2):138-140.
4. Mesenteric cysts and mesenteric venous thrombosis leading to intestinal necrosis in pregnancy managed with laparotomy: a case report and review of the literature. Giannos et al. *Journal of Medical Case Reports* (2017) 11:184.
5. Mohanty S.K., Bal R.K., Maudar K.K. Mesenteric cyst – an unusual presentation. *J Pediatr Surg*. May 1998;33(5):792–793.
6. Pithawa Col AK, Bansal Brig AS, Kochar Brig SPS. Mesenteric cyst: a rare intra-abdominal tumour. *MJAFI* 2014; 70:79-82.
7. Richard R.R. Mesenteric and omental cysts. In: Grosfeld J.L., O'Neill J.A. Jr., Coran A.G., Fonkalsrud E.W., editors. *Pediatric Surgery*. 6th ed. Mosby Elsevier; Philadelphia: 2006. pp. 1399–1406.
8. Beahrs O.M., Judd E.S., Jr., Dockerty M.B. Chylous cysts of the abdomen. *Surg Clin North Am*. 1950;30:1081–1096.
9. Mesenteric cyst in sigmoid mesocolon – A rare location and its laparoscopic excision. Wg Cdr Ameet Kumar, Brig C.K. Jakhmola, Maj Gen N.C. Arora, VSM, Col S.S. Chauhan. *Medical Journal Armed Forces India* 71 (2015) S425-S428.
10. A mesocolonic lymphangioma in an adult with peritonitis: a case report. Yuzo Hirata, Yuzo Okamoto, Hirofumi Nakayama, and Eiji Ono. *Journal of Surgical Case Reports*, 2017;2, 1–3.
11. Lambregts KWFM, Deserno WM, Heemskerck J. Laparoscopic Resection of a Large Mesenteric Cyst – A Case Report. *Int J Surg Res Pract*. 2014;1:009.
12. The diagnosis and treatment of a symptomatic mesenteric cyst. Rajendran S, et al. *BMJ Case Rep* 2014.

### *Correspondência:*

CARLA MENEZES

e-mail: carla81mpmenezes@gmail.com

### *Data de recepção do artigo:*

01/06/2015

### *Data de aceitação do artigo:*

04/12/2018



# Quisto Ovárico Gigante – um Achado Raro

## Giant Ovaric Cyst – a Rare Finding

*João M. Carvas<sup>1</sup>, Alexandra Carrazedo<sup>1</sup>, Diego Perez<sup>2</sup>, Lília Meireles<sup>4</sup>,  
David Tente<sup>5</sup>, Hermínia Martins<sup>5</sup>*

<sup>1</sup> Interno de Formação Específica (IFE) em Cirurgia Geral, Serviço de Cirurgia Geral, ULSNE.

<sup>2</sup> Assistente Hospitalar de Cirurgia Geral, Serviço de Cirurgia Geral, ULSNE.

<sup>3</sup> Consultor de Cirurgia Geral, Serviço de Cirurgia Geral, ULSNE.

<sup>4</sup> Assistente Hospitalar de Patologia, Serviço Anatomo-Patologia, ULSNE.

<sup>5</sup> Diretor de Serviço, Serviço de Cirurgia Geral, ULSNE.

### RESUMO

Os cistadenomas serosos são o principal tipo tumoral do epitélio ovárico nas mulheres pós-menopáusicas. O seu crescimento pode ser indolente, originando um conjunto de sintomas e sinais inespecíficos, muitas vezes desvalorizados pela doente e pelos profissionais de saúde. Esta desvalorização leva a um atraso nos exames de imagem e no diagnóstico. Apresentamos um caso de um quisto abdominal gigante numa mulher pós-menopausica.

**Palavras Chave:** *Cistadenoma Ovárico; Quisto gigante; Quisto abdominal.*

### ABSTRACT

Serous cystadenomas are the main tumours of the ovarian epithelium in postmenopausal women. They can have a slow indolent growth, causing unspecific signs and symptoms, that are frequently not valued by the patients and by health professionals. This leads to a delay in the imaging exams and in the diagnosis. We present a clinical case of an giant abdominal cyst in a postmenopausal woman.

**KeyWords:** *Ovarian cystadenoma; Giant cyst; Abdominal cyst.*

### INTRODUÇÃO

Os tumores ováricos classificam-se em três grupos, consoante a célula que presumivelmente lhes dá origem: epiteliais, estromais e germinativos. Cada categoria é depois subdividida em vários subgrupos. Os tumores que combinam dois ou mais subgrupos são designados por mistos. Os tumores epiteliais têm origem no epitélio superficial do ovário (mesotélio) e correspondem a

60% de todos os tumores do ovário<sup>1</sup>. O subtipo seroso (cistadenoma seroso) é o mais comum dos tumores epiteliais. Estes são geralmente tumores císticos, uniloculados, unilaterais que surgem em mulheres pós-menopáusicas na 5.<sup>a</sup> década de vida. Geralmente são assintomáticos e são diagnosticados acidentalmente durante um exame de imagem<sup>2</sup>. Quando sintomáticos, apresentam já grandes dimensões provocando alterações fisiológicas pelo seu efeito de massa.



## CASO CLÍNICO

Mulher, com 61 anos de idade com antecedentes pessoais de trombocitopenia – acompanhada em consulta de hematologia – artrite reumatóide e bradicardia. Medicada habitualmente com metotrexato, propafenona, bisoprolol, omeprazol e alprazolam. Referia antecedentes cirúrgicos de cesariana aos 23 anos de idade e colocação de pacemaker há um ano. Menopausa desde os 45 anos. A doente negava história familiar de neoplasia. Trazida ao serviço de urgência (SU) por história de dor abdominal com agravamento progressivo e aumento do perímetro abdominal com mais de um ano de evolução. Referia ainda saciedade precoce, enfartamento e obstipação marcada nos últimos meses, bem como tonturas e cefaleias que agravavam com os movimentos. Na semana anterior apuraram-se episódios de vômitos e um episódio de lipotímia. A doente foi encaminhada por um hospital privado onde havia realizado uma ecografia abdominal relatando uma *”volumosa formação quística abdominal de etiologia a esclarecer”*. Ao exame objetivo apresentava um abdómen globoso, mole e depressível, sem massas palpáveis (Figura 1). Analiticamente apresentava leucopenia ( $3.5 \times 10^9/L$ ) sem anemia (Hb 13.1g/dL) e com plaquetas dentro dos valores normais.



FIGURA 1 – Abdómen da paciente antes da cirurgia, com algum grau de distensão, mas sem se objetivar uma massa na palpação.

Apresentava ainda um discreto aumento das enzimas de citólise hepática, mas com função hepática, e renal sem alterações. Realizou eletrocardiograma sem alterações agudas. Realizou tomografia abdomino-pélvica (TC-AP) que confirmou um exuberante quisto, uniloculado, em aparente dependência do ovário direito. Não se observava líquido livre ou adenopatias intrabdominais (Figura 2).

Após observação e discussão do caso com Ginecologia decidiu-se por uma laparotomia exploradora eletiva e exérese em bloco do quisto. Este possuía paredes finas e um tamanho aproximado de 45x30x20cm. Era facilmente destacável dos tecidos envolventes e apresentava aparente origem no ovário direito, embora não se tivesse identificado inequivocamente um pedículo vascular (Figura 3). Não se encontraram outras lesões intra-abdominais e após a confirmação da viabilidade dos órgãos abdominais e pélvicos procedeu-se ao encerramento da parede abdominal. O pós-operatório imediato decorreu sem intercorrências e a doente teve alta clínica ao quarto dia de pós-operatório. O resultado da anatomia patológica revelou quisto com parede de tecido conjuntivo fibroso e com revestimento cúbico simples ciliado, do tipo tubar, compatível com cistadenoma ovárico. Não havia atipias celulares ou outros sinais de malignidade.



FIGURA 2 – Imagens da TC-AP: a direita corte sagital e a esquerda corte axial. Em ambas é possível observar quisto uniloculado de conteúdo homogêneo ocupando grande parte da cavidade abdominal. TC-AP – Tomografia Computorizada Abdomino-pélvica.



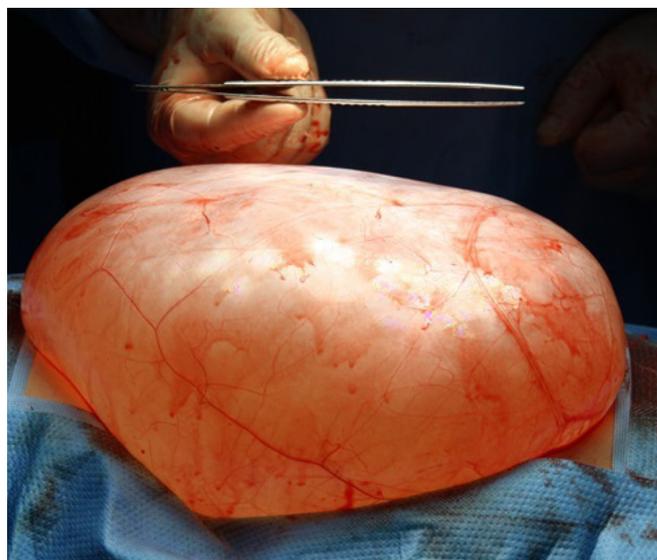


FIGURA 3 – Imagens do quisto abdominal no momento da sua remoção em bloco.

## DISCUSSÃO

Os tumores ováricos serosos podem ser classificados histologicamente como benignos, *borderline* ou malignos. No caso que apresentamos trata-se de um quisto com características imagiológicas de benignidade, nomeadamente o facto de ser uniloculado, unilateral e com conteúdo homogéneo. Os tumores serosos benignos correspondem a 66% dos tumores serosos<sup>1</sup>. Intraoperatoriamente não se verificaram lesões císticas peritoneais ou projeções papilares quísticas, características dos tumores *borderline* que correspondem a 10-15% dos tumores ováricos serosos<sup>1</sup>.

O crescimento destes quisto é habitualmente lento mas inexorável. Os sinais e sintomas decorrem do efeito de massa sobre os órgãos adjacentes. Neste caso a doente apresentava uma panóplia de sinais e sintomas pouco específicos como enfartamento pós-prandial, saciedade precoce e obstipação, tonturas no ortostatismo e lipotímia. O aumento do perímetro abdominal foi notado pela doente há mais de um ano, mas o desenvolvimento lento fê-la acreditar tratar-se de um sinal normal do envelhecimento. A desvalorização dos sinais e sintomas pelo paciente é uma constante nestes casos<sup>2</sup>.

Este é um dos maiores quistos ováricos da literatura nacional, e embora a nível internacional existam publicações com tumores ainda maiores, estes são habitualmente originários de países em vias de desenvolvimento com acesso precário aos cuidados de saúde<sup>3,4</sup>. Independente do tamanho, o tratamento de escolha neste tipo de tumores é ressecção em bloco do quisto, evitando sempre a contaminação da cavidade com conteúdo quístico e a disseminação de possíveis células malignas.

Houve dificuldade na identificação intra-operatória da origem do quisto, devido ao pequeno espaço de trabalho com difícil visualização da parede posterior do quisto. Não se verificaram após a exérese alterações macroscópicas dos ovários ou das trompas de falópio que justificassem a ooforectomia ou a salpingectomia. Existe pelo menos um caso publicado de um quisto seroso ovárico gigante removido mantendo a integridade anexial<sup>4</sup>. Apesar das dúvidas diagnósticas intra-operatórias, quer a TC-AP quer o resultado da anatomia patológica suportam o diagnóstico de quisto ovárico. O epitélio tubar simples do pavimento quístico é típico destes tumores benignos do ovário<sup>5</sup>.

A etiologia destes tumores ainda não é totalmente conhecida. Nesta paciente levantamos a hipótese de um



efeito potenciador do metotrexato. De facto existem trabalhos a ligar este fármaco com o desenvolvimento de quistos ováricos<sup>6</sup>.

## CONCLUSÃO

Os tumores gigantes do ovário são achados cada vez mais raros devido à disponibilidade dos exames de

imagem como a ecografia que levam a um diagnóstico precoce. No caso apresentado existia já uma história com múltiplos sinais e sintomas inespecíficos, de evolução arrastada e que apenas suscitaram um exame de imagem tardiamente no curso da evolução da doença. A cirurgia nestes casos é curativa e representa um claro ganho em qualidade de vida às pacientes. Permite também um diagnóstico definitivo.

## REFERÊNCIAS

1. Chen VW, Ruiz B, Killeen JL, Coté TR, Wu XC, Correa CN. Pathology and classification of ovarian tumors. *Cancer*. 2003 May 15;97(10 Suppl):2631-42.
2. Mülayim B, Gürakan H, Dagli V, Mülayim S, Aydin O, Akkaya H. Unaware of a giant serous cystadenoma: a case report. *Arch Gynaecol Obstet*. 2006;273(6):381-383
3. Young TH, Lee HS. Images in clinical medicine. Giant ovarian cyst. *N Engl J Med*. 2008 May 15;358(20):e22
4. Elhassan SAM, Khan S, El-Makki A. Giant Ovarian Cyst Masquerading as Massive Ascites in an 11-Year-Old. *Case Rep Pediatr*. 2015; 2015: 878716.
5. Bottomley C, Bourne T. Diagnosis and management of ovarian cyst accidents. *Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol*. 2009 Oct. 23(5): 711-24.
6. Ben-Shlomo I, Eliyahu S, Yanai N, Shalev E. Methotrexate as a possible cause of ovarian cysts formation: experience with women treated for ectopic pregnancies. *Fertil Steril*. 1997 Apr;67(4):786-8.

### *Correspondência:*

JOÃO MIGUEL CARVAS  
e-mail: jmcarvas@gmail.com

### *Data de recepção do artigo:*

05-06-2017

### *Data de aceitação do artigo:*

27/05/2019



# Littré's hernia – a case of a Meckel's diverticulum in a strangulated femoral hernia and literature review

## Hérnia de Littré – a propósito de um caso clínico de um divertículo de Meckel numa hérnia femoral estrangulada

Joana S. Moura<sup>1</sup>, André Vinha<sup>1</sup>, Sofia Jardim Neves<sup>1</sup>, Hugo Gameiro<sup>2</sup>,  
Manuel Pinto Ferreira<sup>1</sup>

<sup>1</sup> Médico Interno – Hospital Pêro da Covilhã, Centro Hospitalar Universitário Cova da Beira EPE,  
Quinta do Alvito, 6200-251 Covilhã, Portugal

<sup>2</sup> Médico Assistente – Unidade Local de Saúde Litoral Alentejano,  
Monte do Gilbardinho EN 261, 7540-230 Santiago do Cacém, Portugal

### RESUMO

**Introdução:** O divertículo de Meckel é a anomalia gastrointestinal congénita mais comum e resulta da obliteração incompleta do ducto vitelino. A hérnia de Littré define-se pela presença de um divertículo de Meckel no saco herniário. O estrangulamento do divertículo de Meckel numa hérnia femoral é uma entidade extremamente rara que requer correção cirúrgica imediata.

**Caso Clínico:** Reportamos o caso clínico de uma mulher de 78 anos que recorreu ao serviço de urgência por uma hérnia femoral dolorosa e encarcerada à esquerda, sem sinais ou sintomas de obstrução intestinal associados. Durante a intervenção cirúrgica, aquando da abertura do saco herniário, foi identificado um divertículo de Meckel, procedendo-se então a diverticulectomia. A ansa de intestino delgado não se encontrava herniada nem tinha sinais de isquemia, pelo que não foi necessário realizar uma enterectomia. O defeito herniário foi subsequentemente corrigido através da técnica de Lichtenstein modificada.

**Discussão:** A sintomatologia de um divertículo de Meckel complicado é inespecífica e dependente do tipo de complicação. O diagnóstico de hérnia de Littré é exigente e difícil de estabelecer durante o pré-operatório, uma vez que a sua apresentação clínica é ambígua e a imagiologia tem um papel limitado. Quando a obstrução do intestino delgado é provocada por um divertículo de Meckel complicado, a intervenção cirúrgica tem como objetivo principal remover o divertículo e corrigir a patologia associada, independentemente da abordagem utilizada ser laparoscópica ou cirurgia aberta. **Conclusão:** No caso de uma hérnia de Littré estrangulada o tratamento é baseado na condição clínica do doente e na experiência do cirurgião. Não obstante, o tratamento requer, pelo menos, uma ressecção completa do divertículo para evitar complicações futuras.

**Palavras Chave:** *hernia de Littré, divertículo de Meckel, hérnia femoral, hérnia estrangulada.*

### ABSTRACT

**Introduction:** Meckel's diverticulum is the most common gastrointestinal congenital anomaly and it results from an incomplete obliteration of the vitelline duct. Littré's hernia is defined by the presence of a Meckel's diverticulum in a hernia sac. A strangulated Meckel's diverticulum in a femoral hernia is an extremely rare entity and its management requires prompt surgery. **Case**

**Report:** We describe a case of a 78-year-old woman that presented with a painful incarcerated femoral hernia in her left groin. She did not have any signs or symptoms of bowel obstruction. During surgery, a Meckel's diverticulum was identified in the hernia sac. The



small bowel was not herniated and did not show signs of ischaemia, thus, an enterectomy was not required. A diverticulectomy was performed and the hernia defect was subsequently repaired with a modified Lichtenstein technique. **Discussion:** The symptomatology of a complicated Meckel's diverticulum is non-specific and dependent on the type of complication. The diagnosis of Littre's hernia is challenging and difficult to establish preoperatively since its presentation is ambiguous and imaging has a limited role. When small bowel obstruction is caused by a complicated Meckel's diverticulum, the main aim of surgery is to remove the diverticulum and to correct the associated pathology, either by laparoscopy or by an open surgical approach. **Conclusion:** A patient's condition and surgeon based management is generally adopted in case of a strangulated Littre's hernia. Nevertheless, it requires complete resection of the diverticulum to avoid future complications.

**Keywords:** *Littre's hernia, Meckel's diverticulum, femoral hernia, hernia strangulation.*

## INTRODUCTION

Meckel's diverticulum (MD) is the most frequent gastrointestinal congenital anomaly<sup>[1]</sup>. It was first described by Fabricus Hildanus in the sixteenth century, although it bears the name of Hohann Friedriek Meckel, who described it in detail and predicted its important clinical implications in 1809<sup>[2,3,4]</sup>. These clinical implications were suspected long before clinical appreciation of inflammation of the appendix<sup>[4]</sup>. The first successful diverticulectomy was conducted by Oderfeld in 1892<sup>[4]</sup>.

MD is the remnant of the prenatal yolk stalk. Until it normally regresses between the sixth and ninth weeks of fetal life, the yolk stalk (also called omphalomesenteric duct) connects the primitive gut and the yolk sac of the developing embryo. When the process of regression fails, a MD may occur<sup>[5,6]</sup>.

MD characteristics follow the "rule of 2's", since it occurs in about 2% of the population, 2% of which are symptomatic and it is usually 2 inch length (5 cm) and located 2 feet (60 cm) from the ileocecal valve<sup>[6]</sup>. Several complications of MD have been described, such as obstruction, diverticulitis, hemorrhage and malignant degeneration. Its presence in a hernia sac is a very uncommon complication<sup>[7]</sup>.

Femoral hernia is the second most common hernia of the groin area. It most commonly presents as a flexible, round, dome-shaped, walnut-sized bulge on the medial side of the thigh, 2-3 cm below the inguinal ligament. It is more common in women than men

and reaches up to 34% of all hernias occurring in women. It occurs in less than 5% of hernia cases in men. Due to the rigid and narrow characteristics of the femoral canal, incarceration and strangulation of the hernia contents is highly prevalent, reaching as much as 60%. Thus, prompt surgery is mandatory to avoid complications<sup>[3]</sup>.

Alexis Littre, a French surgeon, in 1700s first described incarcerated femoral hernias containing a MD<sup>[8,9]</sup>. Littre's hernia (LH) is defined by the presence of a MD in any kind of hernia sac [4,7]. LH is extremely rare and about 50 cases have been reported since it was first described<sup>[8,10]</sup>. Strangulation of a MD in a femoral hernia is even rarer<sup>[3,10]</sup>.

We describe a case of a 78-year-old woman with an incarcerated femoral hernia containing a MD, which was identified during surgery.

## CASE REPORT

A 78-year-old caucasian woman, with no significant past medical history, attended our emergency department with complaints of a non-reducible painful mass in her left groin which had been present during the course of two weeks. She denied nausea, vomiting, abdominal pain and altered bowel movements, thus no signs of bowel obstruction were present. She denied the presence of fever at any time, as well as night sweats and weight loss. There was no history of trauma nor of previous abdominal surgeries.



Physical examination was unremarkable except for a non-pulsatile, non-reducible mass, about 3 cm in diameter, located in the left groin. The mass was tender at palpation, hard in consistency and the overlying skin was erythematous. She did not present abdominal pain or fever. Strangulated groin hernia was diagnosed clinically and the patient prepared for urgent surgical intervention. Additionally, blood was collected and laboratory tests conducted: all parameters were within our laboratory ranges, except for a C-reactive protein of 2.01 mg/dL.

Under general anesthesia, a left inguinal incision was made and a strangulated femoral hernia identified. During surgery, upon opening the femoral hernia sac, a thick hemorrhagic non-ruptured MD was identified on the antimesenteric side of the small bowel (figure 1). The small bowel loop was not herniated and did not show signs of ischemia, thus, an enterectomy was not necessary. A diverticulectomy was performed with a linear stapler GIA® 60. There was no spillage of

gastrointestinal contents thus a modified Lichtenstein technique was adopted to correct the hernia defect. This was done by, after handling the sac with a transfixing suture, exposing Cooper's ligament so that a triangular shaped extension of the propylene mesh could be secured to it and to the inguinal ligament with a continuous Prolene® suture. Interrupted sutures were used to secure the medial and upper margins of the mesh. Wound closure was performed in a standard manner.

A seroma of the surgical wound complicated the postoperative period and it was managed with drainage and regular dressings. The patient was discharged on the eighth postoperative day.

Histology report described a saccular structure measuring 4 cm in length and 2,5 cm in width with small bowel wall characteristics. No ectopic mucosa or signs of malignancy were observed. The resected structure was identified as a MD, thus confirming the diagnosis of LH.



FIG. 1 – Meckel's diverticulum with inflammatory signs.



## DISCUSSION

The embryologic origin of MD relies on the development of the midgut. The primitive yolk sac divides into a larger portion, which constitutes the primitive gut, and into a smaller one, which continues as a yolk sac near the placenta. These two portions remain connected by the omphalomesenteric duct, lying within the umbilical cord. Most commonly, this duct begins to obliterate between the sixth and the ninth week of gestation. When obliteration is incomplete and the proximal end of the vitelline duct persists, a MD is formed<sup>[4]</sup>. Other anomalies that may result during the obliteration process are umbilical-intestinal fistula, umbilical *sinus*, fibrous cords attaching the distal ileum to the abdominal wall, enterocystoma and mesodiverticular band<sup>[2,5,6]</sup>. An association of a variety of pathologic conditions with MD has been found. These conditions are intestinal obstruction due to band, volvulus, intussusception, regional enteritis, herniation, enterolith formation, diverticulitis, foreign bodies, fistula, and tumors such as angioma, lipoma, leiomyoma, fibroma, carcinoid, adenocarcinoma and sarcoma. Anorectal malformations, exomphalos, central nervous system and cardiovascular malformations, esophageal atresia and angiodysplasia are other associated pathological conditions<sup>[2]</sup>.

MD can be found on the antimesenteric border of the terminal ileum, 45 cm – 90 cm proximally to the ileocecal valve<sup>[2,5]</sup>. The diverticulum may be long and narrow or present as a short outpouch of the ileum<sup>[4]</sup>. More commonly, and as we can see in our case in (figure 1), the tip of the diverticulum is unattached, although it can be adherent to adjacent bowel or mesentery or connected to the undersurface of the umbilicus by fibrous remnants of the obliterated duct<sup>[4]</sup>. MD duplication has been reported<sup>[1]</sup>.

MD is a true diverticulum as it contains all the three layers of the intestinal wall<sup>[2,8]</sup>. It has its own blood supply from the superior mesenteric artery and it is vulnerable to infection and obstruction<sup>[2,5]</sup>. As a result of pluripotency of vitelline duct cell lining, heterotopic mucosa may also be found<sup>[5]</sup>. About half of MD contain

ectopic gastric or pancreatic mucosa. Less commonly, jejunal, duodenal, colonic mucosa, endometriosis and hepatobiliary tissue may be present<sup>[2,5]</sup>. In our patient's pathology results only small bowel mucosa was found.

The range of incidence of MD varies amongst the literature from 0.2% to 4% of the population. Although autopsy studies report an incidence of 0,3%, surgical studies more commonly refer to a 2% incidence<sup>[2,3,4,5,6,8,9]</sup>. MD is in most instances an incidental finding during a small bowel contrast study, during a laparoscopy or a laparotomy done for an unrelated condition<sup>[4,5]</sup>. It is as common in males as it is in females, although the rate of complications is higher in men<sup>[2,5]</sup>. The ratio of complications vary from 1.8:1 to 3:1<sup>[5]</sup>. No explanation in the literature for this fact was found.

Although clinical manifestations are more common in pediatric age, MD can cause symptoms at any age. The presence of a MD carries a 4% to 6% lifetime risk of developing a complication<sup>[5]</sup>. Male gender, age (< 10 years), the length of the diverticulum (> 4 cm) and the presence of gastric or pancreatic heterotopic tissue in the diverticulum have been pointed out as risk factors for complications<sup>[7]</sup>.

The symptomatology of a complicated MD is non-specific and dependent on the type of complication. Hence the diagnosis is difficult to establish. MD may present itself as an anaemic syndrome, features of appendicitis, bowel obstruction, acute peritonitis or as haemorrhagic shock<sup>[6]</sup>.

Gastrointestinal bleeding due to ulceration is the most common complication of MD in the pediatric age group, specifically in children aged 2 years or younger<sup>[5,8]</sup>. The ectopic gastric mucosa and the adjacent ileal mucosa are vulnerable to ulceration, which may cause gastrointestinal bleeding<sup>[2,5,6]</sup>. In these patients, regardless their age group, segmental resection is indicated since bleeding from the adjacent ileum may recur postoperatively if only a simple diverticulectomy is performed<sup>[2,5]</sup>. In the adult population, bowel obstruction is the most common complication and it is usually followed by inflammation and bleeding<sup>[5,8]</sup>. In the case of obstruction the presentation is similar no



matter its cause. Signs and symptoms of small bowel obstruction, such as absolute constipation, spasmodic abdominal pain and vomiting, are typically present [5]. The mechanisms by which a MD can cause intestinal obstruction are: volvulus of small intestine around a fibrous band extending from MD to umbilicus; intussusception in which the MD sags into the bowel lumen and serves as a lead point to allow telescoping of the small intestine; mesodiverticular band known by entrapment of small bowel beneath the diverticulum blood supply; chronic diverticulitis causing stricture; MD lithiasis and LH[5]. When small bowel obstruction is caused by a complicated MD, the main aim of surgery is to remove the MD and to correct the associated pathology. This can be performed under a laparoscopic or an open surgical approach[5].

Femoral hernias are characterized by the protrusion of abdominal contents through the femoral ring. They are more frequent in women than in men in a 4:1 ratio and constitute about one third of all hernias in women[3]. A femoral hernia may present as a small bulge of approximately 5 cm, dome shaped, in the medial aspect of the thigh, located 2 cm to 3 cm below the inguinal ligament. The right side is more commonly affected[3]. Since the femoral canal is narrow and rigid, the contents incarcerate or strangulate in up to 60% of cases[3,8]. In most cases, the lacunar ligament is responsible for the constriction[3].

Femoral hernia is always acquired. It may contain, amongst others, stomach, omentum, colon, small bowel, the appendix, urinary bladder or a fallopian tube[3].

LH is the type of herniation where a MD is the content of the hernia sac. Although Littré first described it as a femoral hernia, half of Littré's hernias are inguinal. It may also occur as an umbilical hernia[1,8,11,10]. It is more common in women and in the right inguinal canal[7,9,10].

Clinically, there are no specific signs to recognize the extremely rare cases of incarcerated LH preoperatively[7,8]. When only the diverticulum is located within the hernia sac the bowel lumen is not obstructed[8]. Hence, the signs and symptoms of

an incarcerated MD on presentation are thought to progress slower than a hernia involving the complete lumen of the small bowel[9,11]. If systemic inflammation with pain and fever is present, it might be less severe and occur late in the course of the disease[8,9]. Incarceration of a hernia is a term used to describe entrapment of the hernia contents. It leads to swelling of the trapped tissue. Ultimately, the entrapment and the swelling reduce arterial flow, which results in ischemia and necrosis of the hernia contents – strangulation[8]. Femoral hernia incarceration is a potentially life-threatening complication. Although it usually presents as a non-reducible mass, on the medial aspect of the thigh, other clinical symptoms of an incarcerated femoral hernia are often ambiguous and they greatly depend on the content of the hernia sac. Since a MD, an appendix, a fallopian tube or bladder within the hernia sac may not present with gastrointestinal occlusion symptoms, the correct diagnosis often occurs during surgery[3]. On the contrary, there might be associated symptoms of bowel obstruction if, for example, the bowel becomes kinked when it is caught inside the femoral ring[9]. Skin changes, abdominal distension or even peritonitis may accompany this presentation[8,9]. In our case, considering the relatively long history of symptoms and the absence of gastrointestinal tract complaints, a total intestinal obstruction was not likely.

The early diagnosis of groin hernia may be even more complicated due to a broad spectrum of differentials. Great saphenous vein varicosity, femoral artery aneurysm, ectopic testis, psoas abscess, cystic masses and enlarged lymph nodes may present as a groin mass[3,8].

Being widely available, non-invasive and cheap, ultrasonography might be useful in the diagnosis of LH. By demonstrating characteristics of intestine wall, ultrasonography can help excluding other differential diagnosis thus avoiding unnecessary invasive interventions such as biopsy and groin exploration[8]. Misiak et al. refer to ultrasonography as a contributor to a correct preoperative diagnosis[3]. On the contrary, Magagi et al.[7] stated that ultrasonography does not offer further information indicating the presence of a Littré's hernia while computed tomographic scan could



demonstrate MD as a blind-ending tubular formation communicating with the distal ileum<sup>[7]</sup>.

Strategies on MD complications management have been based on the patient's condition and on the surgeon's perspective, which seems to be appropriate in an emergency condition<sup>[5]</sup>.

There is no consensus on the best treatment for an asymptomatic MD. Its surgical removal may comprise an increased risk of morbidity and mortality when compared to symptomatic MD. López-Lizárraga et al.<sup>[1]</sup> suggested an asymptomatic MD should be resected if it follows the Park criteria: patient younger than 50 years, male sex, diverticulum length greater than 2 cm and an ectopic or abnormal features within the diverticulum<sup>[1]</sup>.

The treatment of LH is surgical. It includes resection of the diverticulum and hernia defect repair<sup>[5]</sup>. Resection of MD is recommended due to the risk of complications<sup>[7]</sup>. MD surgical resection may be done by simple diverticulectomy using a linear GI stapler or by segmental resection of the involved small bowel and primary anastomosis<sup>[11]</sup>. Some authors prefer a wedge resection of the diverticulum, justifying their choice by the lack of studies comparing the outcome of wedge resection as against resection and anastomosis<sup>[1,7]</sup>. Nevertheless, in case of perforation, bowel ischaemia, edema or inflammation at the base of the diverticulum, or when there is palpable ectopic tissue at the diverticular-intestinal junction, a resection and small bowel anastomosis is recommended<sup>[1,11]</sup>.

If an open repair approach is adopted, traditional methods to repair the hernia defect should be undertaken after MD resection<sup>[11]</sup>. The repair is generally not complicated by MD removal. However, a theoretical increased risk of hernia site infection has been pointed out<sup>[11]</sup>. An incision above the inguinal ligament for femoral hernia defect correction is recommended for younger patients. Although femoral access tends to cause less perioperative trauma, it has a higher percentage of recurrence and makes the resection of the ischaemic

intestinal fragment highly difficult to conduct. Nevertheless, Misiak et al.<sup>[3]</sup> recommend femoral access as the first-choice approach for elderly patients. An incision above the inguinal ligament seemed more appropriate in our patient as she was very active in her daily routine. This approach allowed us to examine the bowel without difficulty. The ileum was not incarcerated and did not show any signs of ischaemia nor alteration upon palpation of the diverticular-intestinal junction, thus only a diverticulectomy was performed.

The advent of laparoscopic surgery has altered the management of all abdominal hernias, including LH. It is a safe, inexpensive and efficient method for the diagnosis and treatment of LH<sup>[10]</sup>. Chan et al.<sup>[12]</sup> suggest that the limited preperitoneal dissection, without dissection and exploration of the edematous groin structures, theoretically, makes laparoscopic repair superior to traditional open repair in the management of incarcerated LH. The MD can be excised by endoscopic stapler or via an extended umbilical wound. The excision via an extended umbilical wound, in pediatric reports, has been the preferred method as it allows direct vision and palpation of ectopic mucosa in the adjacent ileum when present, thus leading to a small bowel resection<sup>[12]</sup>.

## CONCLUSION

The incidence of a MD in a femoral hernia is extremely rare. LH is difficult to diagnose preoperatively, as the clinical symptoms are not specific. A patient's condition and surgeon based management is generally adopted to this emergent situation. Ultrasound might be an useful diagnostic tool. The appropriate treatment of LH requires, at minimum, a complete resection of the diverticulum to avoid future complications. A laparoscopic approach to this type of hernia has been shown to be safe and effective and shows additional advantages in comparison to an open repair.



## REFERENCES

- [1] López-Lizárraga CR, Sánchez-Muñoz MP, Juárez-López GE, Pelayo-Orozco L, De la Cernadas-Trujillo LF, Ploneda-Valencia CF (2017) A rare case of a strangulated Littre's hernia with Meckel's diverticulum duplication. Case report and literature review. *Int J Surg Case Rep.* 33: 58-61. doi: 10.1016/j.ijscr.2017.02.032
- [2] Malik AA, Shams-ul-Bari, Wani KA, Khaja AR (2010) Meckel's Diverticulum – Revisited. *Saudi J Gastroenterol* 16 (1): 3-7. Doi: 10.4103/1319-3767.58760
- [3] Misiak P, Piskor L, Katrin L, Jabłoński S, Kordiak J, Brockley M (2014) Strangulation of a Meckel's diverticulum in a femoral hernia (Littre's hernia). *Prz Gastroenterol* 9 (3): 172-174. doi: 10.5114/pg. 2014.43580
- [4] Johns TNP, Wheeler JR, Johns FS (1959) Meckel's Diverticulum and Meckel's Diverticulum Disease: A Study of 154 cases. *Ann Surg* 150 (2): 241-256.
- [5] Sharma RK, Jain VK (2008) Emergency surgery for Meckel's diverticulum. *World J Emerg Surg* 3: 27. doi 10.1186/1749-7922-3-27
- [6] Stănescu GL, Pleșea IE, Diaconu R, Gheonea C, Sabetay C, Tișteea D, Niculescu EC (2014) Meckel's diverticulum in children, clinical and pathological aspects. *Rom J Morphol Embryol*, 55 (3 Suppl):1167-70.
- [7] Magagi IA, Adamou H, Habou O (2016) A case of Littre's hernia at Zinder National Hospital, Zinder, Niger. *J West Afr Coll Surg* 6 (2): 125-130.
- [8] Malling B, Karlsen AA, Hern J (2017) Littre Hernia: A Rare Case of an Incarcerated Meckel's Diverticulum. *Ultrasound Int Open* 3 (2): E91-92. doi: 10.1055/s-0043-102179
- [9] Payson BA, Schneider KM, Victor MB (1956) Strangulation of a Meckel's Diverticulum in a Femoral Hernia (Littre's). *Ann Surg* 144 (2): 277-281.
- [10] Smart N, Immanuel A, Mercer-Jones M (2007) Laparoscopic repair of a Littre's hernia with porcine dermal collagen implant (Permacol). *Hernia* 11: 373-376. doi: 10.1007/s10029-007-0197-4
- [11] Horkoff MJ, Smyth NG, Hunter JM (2014) A large incarcerated Meckel's diverticulum in an inguinal hernia. *Int J Surg Case Rep.* 5(12): 899-901. doi: 10.1016/j.ijscr.2014.09.036
- [12] Chan KW, Lee KH, Mou JWC, Cheung ST, Tam YH (2008) The use of laparoscopy in the management of Littre's hernia in children. *Pediatr Surg Int* 24: 855-858. doi: 10.1007/s00383-008-2161-5

### *Correspondência:*

JOANA S. MOURA  
e-mail: joanamoura236@gmail.com

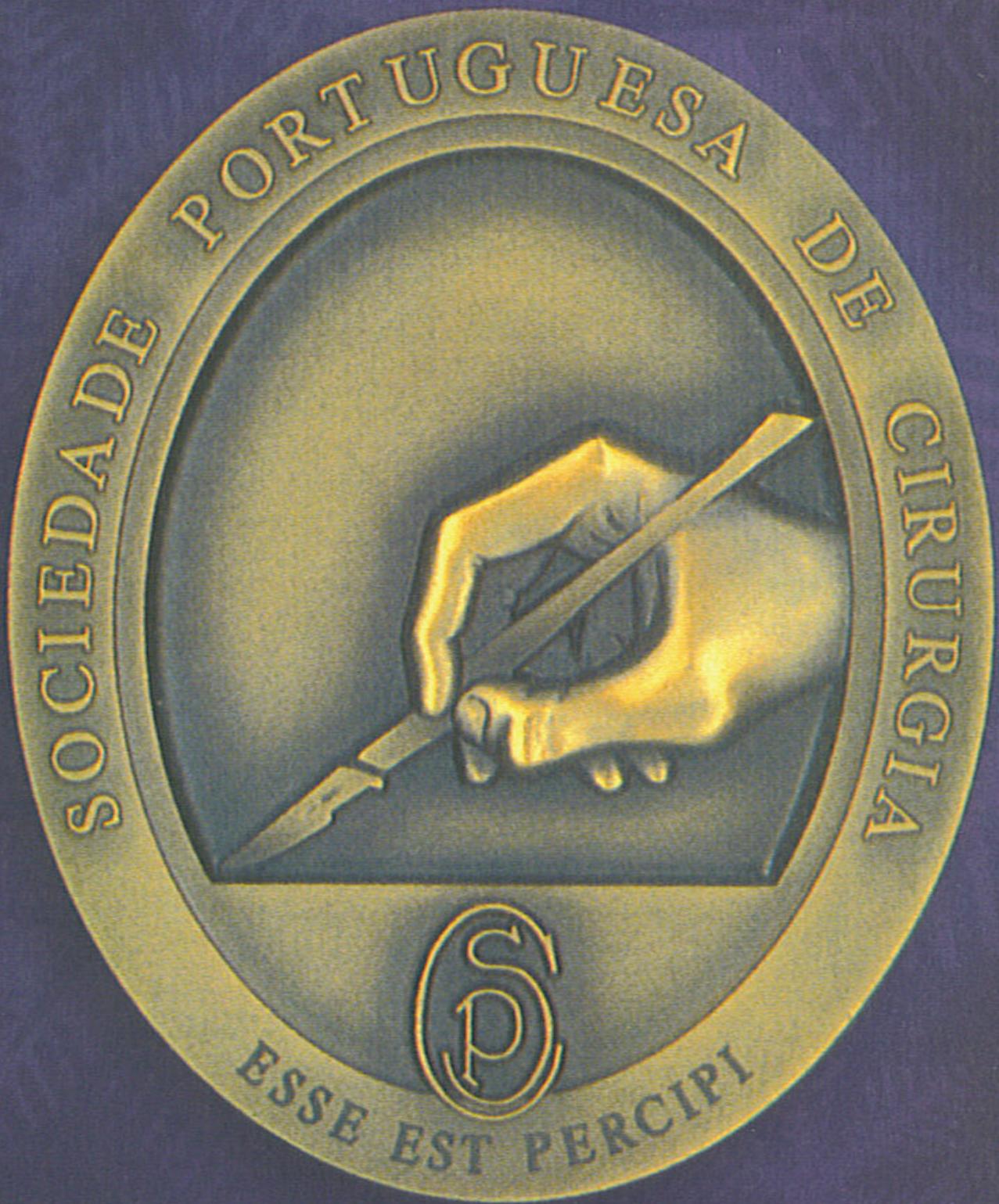
### *Data de recepção do artigo:*

02/11/2017

### *Data de aceitação do artigo:*

20/03/2019





# Carcinoma papilar do canal tireoglosso – Relato de caso e revisão da literatura

## Papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst – Case report and literature review

*Florinda Cardoso<sup>1</sup>, Alexandre Alves<sup>1</sup>, Isabel Caldas<sup>2</sup>, Jessica Neves<sup>3</sup>, Mário Nora<sup>4</sup>*

<sup>1</sup> Assistente Hospitalar Graduado de Cirurgia Geral – Centro Hospitalar Entre o Douro e Vouga

<sup>2</sup> Interna de Formação Específica em Cirurgia Geral – Centro Hospitalar Entre o Douro e Vouga

<sup>3</sup> Interna de Formação Específica em Cirurgia Geral – Hospital da Figueira da Foz  
em estágio no Centro Hospitalar Entre o Douro e Vouga

<sup>4</sup> Diretor de Serviço – Centro Hospitalar Entre o Douro e Vouga

### RESUMO

O carcinoma papilar do canal tireoglosso é um tumor maligno que se desenvolve no cisto do canal tireoglosso. É uma entidade rara, diagnosticada geralmente na idade adulta e caracteriza-se pelo seu comportamento indolente. Apresentamos este caso pela sua raridade e forma de apresentação, e pela falta de consenso para o tratamento definitivo.

**Palavras-chave:** *Carcinoma papilar da tiroide, quisto do canal tireoglosso.*

### ABSTRACT

Papillary carcinoma of the thyroglossal canal is a malignant tumor that develops in the cyst of the thyroglossal canal. It is a rare entity, usually diagnosed in adulthood and is characterized by its benevolent behavior. We present this case by its rarity and presentation, and by the lack of consensus for definitive treatment.

**Keywords:** *Thyroid papillary carcinoma, Thyroglossal duct cyst.*

### INTRODUÇÃO

O Cisto do Canal Tireoglosso (CCT) é um remanescente da glândula tiroideia. É a malformação congénita cervical mais frequente<sup>[1]</sup>, correspondendo a 7% dos tumores da linha média diagnosticados em adultos.

Podem estar localizado desde a base da língua até ao lobo piramidal. Nos adultos o CCT não se apresenta ecograficamente como cisto simples, mas antes com um padrão complexo que pode ir desde anecoico típico (28% dos casos), hipoeicoico com resíduos internos (18%); até uma aparência pseudo-sólida (28%) e heterogénea (28%)<sup>[2]</sup>.



A transformação maligna para Carcinoma Papilar do Cisto do Canal Tireoglossos (CPCCT) ocorre em cerca de 1% dos CCT. Foi descrito pela 1ª vez por Bretano em 1911 e o seu diagnóstico é maioritariamente accidental, durante o estudo histológico de uma peça de excisão de CCT. Estão descritos cerca de 250 casos em todo o mundo. Neste artigo, apresentamos um caso clínico de CPCCT pela sua raridade, forma de apresentação e discussão sobre as opções de tratamento.

## CASO CLÍNICO

Homem de 47 anos orientado para a Consulta Externa de Cirurgia em 01 de Fevereiro de 2017 por apresentar tumoração na região submentoniana, na linha média, com 4 meses de evolução, de crescimento rápido, indolor. Sem história de hipersudorese, febre, rouquidão, dispneia ou disfagia. Sem anorexia, astenia ou emagrecimento. Negava processos inflamatórios prévios e sem história de irradiação cervical.

Ao exame objectivo apresentava tumefacção dura, pouco móvel, com cerca de 5cm de maior diâmetro. Bordos mal definidos, superfície irregular. Não móvel com a protusão da língua, fixa aos planos profundos, sem invasão cutânea. Sem adenopatias cervicais ou occipitais palpáveis.

Motorista de profissão tinha como antecedentes pessoais ser fumador de 10 cigarros/dia, consumo moderado de bebidas alcoólicas, sem medicação habitual.

Era portador de TC Pescoço (partes moles) de 18-01-2017: (figura 1) Na região sublingual pré e tiroideia referenciamos formação nodular captante com 14 mm x 8 mm revelando calcificação periférica anterior envolvida por conglomerado de adenopatias; etiologia algo inespecífica (glândula sublingual?). Ao longo dos diferentes compartimentos cervicais referimos apenas pequenas formações ganglionares milimétricas em pequeno número e jugulocarótídeas bilaterais não se identificando outras massas anómalas.”



FIGURA 1 – TC do pescoço: Na região sublingual pré e tiroideia evidência de formação nodular captante com 14 mm x 8 mm revelando calcificação periférica anterior envolvida por conglomerado de adenopatias.

Consulta de ORL: laringoscopia indirecta normal.

Punção Aspirativa por Agulha Fina (PAAF) de 02-02-2017: O perfil imunohistoquímico avaliado sugere tratar-se de ADENOCARCINOMA, com possível origem pulmonar, esofágico ou tiroideo. Imunofenotipagem: Positivo focalmente para Citoqueratina 7, Citoqueratina 19, CAM 5.2, EMA, Napsina A, TTF1 e CD68, negativo com Citoqueratina 5; Citoqueratina 20, P63 e CDX2.

TC toracoabdominopelvico de 16-02-2017: sem alterações significativas

Eco tiroidea de 16-02-2017: Na transição entre a região submentoniana e a cervical anterior, e correspondendo à tumefacção clinicamente palpável, observa-se uma formação nodular heterogénea, lobulada, maioritariamente quística, com algumas áreas centrais sólidas, esboçando pequenos focos hiper-reflectivos sugestivos de calcificações. (figura 2) Tiróide de normais dimensões, contornos regulares e ecoestrutura homogénea, sem nódulos individualizáveis. Não se observam adenomegalias laterocervicais ou outros processos expansivos. Os aspectos imagiológicos da lesão cervical são sugestivos de neoplasia da tiróide em canal tireoglossos.



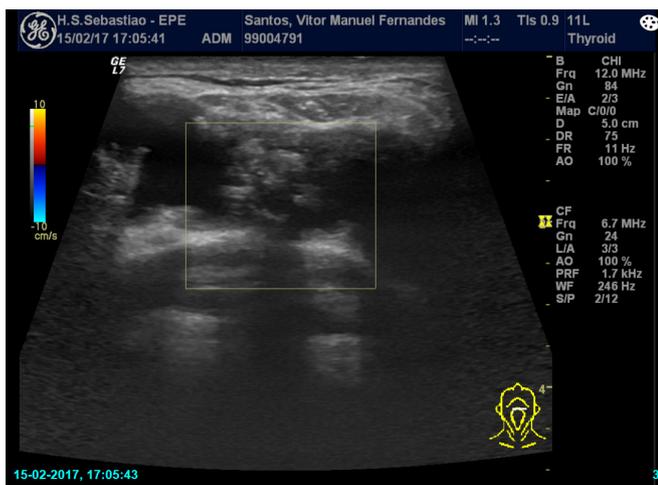
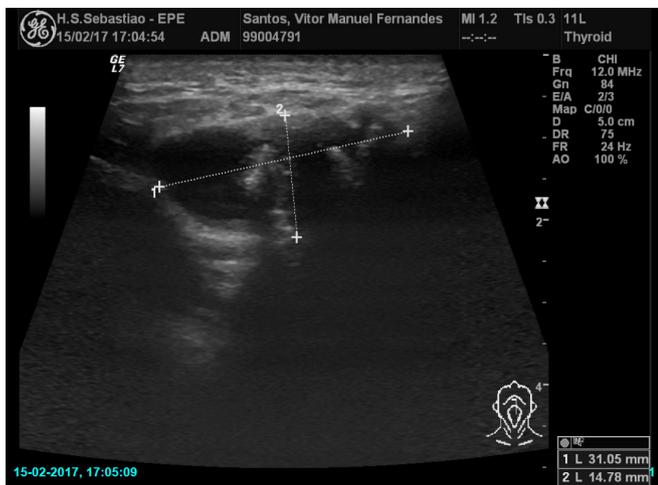


FIGURA 2 – Ecografia tiroidea: formação nodular heterogênea, lobulada, maioritariamente quística, com algumas áreas centrais sólidas, esboçando pequenos focos hiper-reflectivos sugestivos de calcificações.

Endoscopia Digestiva Alta de 17-02-2017 – normal

Cintigrafia da Tireoide com Iodo-131 de 13-03-2017: Sem evidência focos de captação extra-tiroideia do radiofármaco que possam sugerir tecido tiroideu funcional, nomeadamente na região do canal tireoglossos ou na região submentoniana.

Operação de Sistrunk em 22 de março de 2017, com pedido de exame extemporâneo. Histologia: retalho recidivar irregular de 6x6x3cm e 25g, de superfície com inúmeras aderências e na qual se identifica retalho de corpo de osso hióide com 25x15mm e ao qual adere estrutura nodular, de superfície bosselada e, ao corte,

de aspeto multiquístico, com locas de tamanho variável, paredes finas, a maior com 12mm, e ainda com algumas áreas sólidas, de aspecto microgranuloso e conteúdo sero-hemático. O exame histológico, permite confirmar o diagnóstico provisório fornecido per-operatoriamente e mostra estruturas próprias de CISTO DO DUCTO TIROGLOSSO, onde se desenvolve neoplasia epitelial maligna com características próprias de CARCINOMA PAPILAR, variante “clássica”, que invade a parede; não se identificam imagens sugestivas de permeação vascular linfática; (figura 3) à peça aderem dois gânglios linfáticos de tamanho variável, ambos histologicamente não metastizados; planos cirúrgicos livres de envolvimento neoplásico; a neoplasia dista 9mm do plano cirúrgico de seção mais próxima.

Em consulta de Grupo Multidisciplinar de 14-04-2017 decidiu-se vigilância, na consulta externa de Cirurgia Geral.

Exames de seguimento: Ecografia tiroidea e do pescoço, TSH e T4L de Março de 2019 dentro da normalidade.

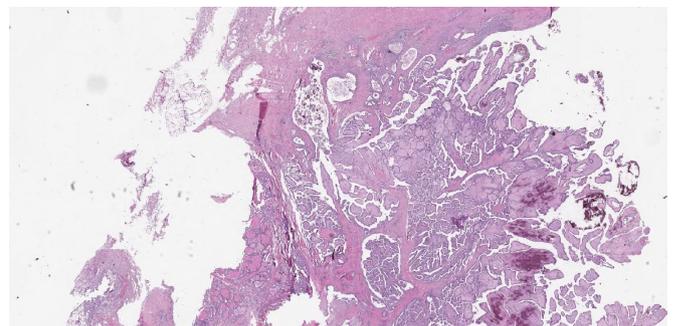


FIGURA 3 – Peça de histologia (Coloração de H&E x100) mostrando parede do cisto ocupado por tumor papilar delimitado por células cubóides e presença de corpos Psamomatosos.

## DISCUSSÃO

A Glândula Tireoidea (GT) tem uma origem embriológica próxima ao buraco cego da língua, e passa pelo osso hióide em desenvolvimento. A GT desce por um canal epitelial conhecido como ducto do tireoglossos.



Este canal oblitera durante a 8ª e a 10ª semana gestacional. Contudo, na atrofia incompleta deste canal podem sucumbir cistos e/ou tecido tiroideu acessório nos seus remanescentes. O remanescente do ducto tireoglossal pode ser um cisto, um ducto, um trajecto, uma fístula ou tecido tiroideu ectópico num cisto ou ducto<sup>[1]</sup>.

O CCT apresenta-se normalmente como uma tumoração assintomática palpável na linha média ao nível ou abaixo do osso hióide.

A transformação maligna é uma complicação rara no CCT. A sua incidência é maior na 3ª e 4ª década de vida, raramente ocorre em crianças menores de 14 anos e com predomínio no sexo feminino (3:2)<sup>[1]</sup>. Não foram identificadas condições predisponentes de transformação maligna, embora a radiação seja considerada um factor de risco, tal como ocorre nos outros carcinomas papilares da tiróide<sup>[3]</sup>.

A apresentação do CPCCT é similar à apresentação do CCT. Muitos deles só diagnosticados após a cirurgia, no estudo anatomopatológico da peça. Os tumores papilares síncronos na tiróide e no CCT representam mais possivelmente uma situação de multifocalidade que de metastização<sup>[1]</sup> e ocorre entre 11 a 33% dos pacientes.

A queixa principal é a presença de uma tumoração assintomática na linha média do pescoço. A suspeição de carcinoma, por se tratar de uma massa dura, aderente ao plano profundo, crescimento rápido e podendo tornar-se dolorosa, assim como o desenvolvimento de adenomegalias cervicais.

Podemos estar perante dois tipos histológicos – o carcinoma tiroideu (92%) com origem em células tiroembrionárias remanescentes do ducto ou cisto ou um carcinoma epidermóide (7%) com origem nas células cubóides metaplásicas/células colunares do ducto (Quadro 1).<sup>[3]</sup>

QUADRO 1 – Tipos histológicos mais comuns:

80%	Carcinoma (Ca) papilar da Tiroide
8%	Variante folicular de Ca papilar da Tiroide
6%	Ca Epidermóide (Ca de células escamosas)
6%	Ca folicular da Tiróide; Adenocarcinoma; Ca anaplástico da Tiroide

A metastização para gânglios regionais ocorre em 7,7 a 12,9% dos doentes, uma taxa inferior ao que ocorre no carcinoma papilar da tiróide, e a invasão local é rara. O nosso doente não tinha gânglios atingidos e tinha invasão na parede do cisto.

O diagnóstico diferencial inclui o carcinoma da tiróide do lobo piramidal e metastização em gânglios pré-laríngeos (Quadro 2). É importante distinguir estas possibilidades, para a seleção adequada da cirurgia, assim como também do tratamento adjuvante.

O reconhecimento de que o carcinoma tem origem no remanescente do canal tireoglossal tem importância clínica e prática<sup>[4]</sup>. O diagnóstico histológico de CPCCT requer a presença e células malignas e a presença de tecido tiroideu normal no cisto, assim como a presença de epitélio escamoso<sup>[5]</sup> (Quadro 2). De todos os tipos de neoplasia no CCT, o CPCCT é o que tem melhor prognóstico, idêntico ao do carcinoma papilar da tiróide com uma taxa de cura de 95%<sup>[2]</sup>.

QUADRO 2 – Critérios de diagnóstico de carcinoma papilar do CCT

O cisto deve estar na linha média
A parede do cisto deve ser constituída por células epiteliais cubóides (escamosas)
Presença de folículos tiroideos na parede do cisto
Excluir Carcinoma do lobo piramidal e tiróide

A ecografia pode demonstrar um espessamento assimétrico ou nódulo sólido na parede de um cisto, por vezes microcalcificações. A TC ou RM é feita para confirmar o diagnóstico e excluir a presença de outras tumorações. A presença de calcificações na ECO ou TC tem um valor preditivo positivo elevado para carcinoma<sup>[1,3,6]</sup>. As calcificações correspondem aos corpos psamomatosos visíveis histologicamente. Foi o que indicou ao nosso radiologista poder tratar-se de um CPCCT.

A PAAF é considerada um exame seguro, pouco dispendioso, bem tolerado e com boa relação custo/eficácia. Deve ser realizada no pré-operatório em lesões



suspeitas. É um exame com taxa de falsos negativos de 40 a 50%<sup>[7]</sup> que se justifica por se biopsar lesões pequenas, com amostras subótimas e por diluição da amostra pelo fluido dos cistos. No nosso caso, devido à falta de informação sobre a localização da tumoração, a PAAF gerou dúvidas de diagnóstico e aumentou a necessidade de exames complementares.

Nos pacientes com o diagnóstico de CPCCT no pré operatório é importante identificar de que há tecido tiróideo funcionante na sua posição normal, para excluir tiróide ectópica. A cintigrafia da tiróide e a função tiroideia (FT) devem fazer parte do estudo pré operatório. O caso relatado apresentava tiróide com dimensões, localização e função normal, sem nódulos.

Atualmente não há consenso quanto à cirurgia definitiva. A extensão do tratamento deve ser baseada na estratificação individual do risco<sup>[8]</sup>. No caso de PAAF inconclusiva deve realizar-se exame extemporâneo da peça com cortes de congelação.

O 1º passo deve ser sempre uma operação de Sistrunk alargada e completa, o que inclui a ressecção em bloco do remanescente do cisto e do canal do tireoglossos e a porção medial do corpo do osso hióide e os tecidos moles ao longo do canal até ao Buraco Cego<sup>[7]</sup> contudo há ainda controvérsias da necessidade de tiroidectomia total.

A Tiroidectomia Total (TT) permite a excisão de carcinomas ocultos da tiróide, permite um bom follow-up, aumenta a sensibilidade das cintigrafias com o iodo e permite o tratamento com Iodo radioactivo. Permite ainda usar a tiroglobulina como marcador do status tumoral. Pelo que há ainda autores que preconizam a TT em doentes com CPCCT, mesmo naqueles em que não há evidencia clinica de patologia tiroideia, dado a doença ser multifocal<sup>[1,10,11]</sup>. Outros autores advogam que na presença de uma glândula tiroideia normal, clinica e imagiologicamente, não se fazer a TT. Os defensores desta teoria lembram que a

maioria dos carcinomas da tiróide são microcarcinomas, o que também é frequente em 2 a 5% da população<sup>[12]</sup> e portanto poupam a tiróide em doentes com menos de 45 anos de idade, sem história de exposição a radiação, carcinomas com menos de 1,5cm, sem invasão da parede do cisto, tumores de baixo grau, margens livres e sem evidência de metastização ganglionar ou à distância<sup>[13-17]</sup>.

A dissecação ganglionar está indicada apenas nos casos com gânglios comprovadamente metastizados.

Alguns autores advogam após a TT, a supressão da TSH com levotiroxina.

Quando a TT não é realizada, é necessário uma monitorização longa para detectar um carcinoma latente da tiróide. Deve ser realizada a vigilância com a FT e ecografia.

## CONCLUSÃO

As lesões malignas do remanescente do canal tireoglossos são raras, sendo a maioria carcinoma papilar. A sua suspeição pode ser difícil. Para tumefações com crescimento rápido na linha média do pescoço deve realizar-se exame de imagem e PAAF. O CPCCT tem bom prognóstico e raramente apresenta metastização ganglionar.

A operação de Sistrunk está adequada para a maioria dos doentes com glândula tiróideia clinica e imagiologicamente normal.

Contudo, um tratamento mais agressivo, incluindo TT, Iodo radioactivo e supressão da TSH é necessário em lesões avançadas, com suspeição clinica ou imagiológica de lesões síncronas na glândula tiroideia ou no caso de suspeição de se tratar de metástases. No caso de adenopatias diagnosticadas pré operatoricamente ou durante o intra-operatório, está indicado a linfadenectomia cervical apropriada.



## REFERÊNCIAS

- [1] Omar Sabra, Waleed M. Basha, Moutaz Osman. Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant: A case report and discussion on management. Egyptian Journal of ear, Nose, throat and Allied Sciences 2014;15:159-163
- [2] Ahuja A, King A, King W, Metreweli C. Thyroglossal duct cyst: sonographic appearances in adults. Am J Neuroradiol. 1999;20:579-582
- [3] Rayess HM, Monk i, Svider PF, e al. Thyroglossal Duct Cyst Carcinoma: A Systematic Review of Clinical Features and Outcomes. Otolaryngol Head Neck Surg 2017;156:794
- [4] Devinder K. et al. Primary Papillary Carcinoma arising in a Thyroglossal Duct Cyst. Indian journal of medical & Paediatric Oncology 2006; Vol.27 N°2
- [5] Joseph TJ, Komorowski RA. Thyroglossal Duct Carcinoma. Hum Pathology. 1975; 6:717-729
- [6] Taori K, Rohatgi S, Mahore D M, Dubey J, Saini T. Papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst – a case reeport and review of literature. Indian J Radiol Imaging 2005;15:531-533
- [7] Agrawal K, Puri V and Singh S: Critical appraisal of FNAC in the diagnosis of primary papillary carcinoma arising in the thyroglossal cyst: A case report with review of the literature on FNAC and its diagnostic pitfalls. J. Cytol., 2010;27(1):22-25
- [8] Shirish S. Chandanwale, Archana C. Bush, Kaur R. Chawla, Pratik U. Mittal. Fine needle aspiration cytology of thyroglossal duct cyst: Diagnostic pitfalls and a study of 14 cases. Thyroid Research and Practice/Sept-December 2013/vol 10/Issue 3
- [9] Song-I yang, Kwang-Kuk Park, Jeung-Hoon Kim. Papillary Carcinoma arising from thyroglossal duct cyst with thyroid and lateral neck metastasis. International Journal of Surgery case Reports 4 (2013) 704-707
- [10] Pellegriti G, Lumera G, malandrino P, Latina A, Masucci R, et al. Thyroid Cancer in Thyroglossal Duct Cysts Requires a Specific Approach due to its unpredictable Extension J Clin Endocrinol Metab, 2013;98(2):458-465
- [11] Marks S. Persky, MD. Artigo de opinião. Total Thyroidectomy as Appropriate Treatment for papillary carcinoma in a Thyroglossal Duct Cyst. Arch Otolaryngol Head Neck Surg April 2002;128:463
- [12] Plaza CPR, Lopez MED; Carrasco CEG, Meseguer LM, Perucho AF. Management of Well Differentiated Thyroglossal Remnant Thyroid Carcinoma: time to close the debate? Report of five new cases and proposal of a definitive algorithm for treatment Ann Surg. Oncol 2006;13 (95):745-752
- [13] David Myssiorek, MD. Artigo de opinião: Total Thyroidectomy is overly aggressive Treatment for Papillary carcinoma in a Thyroglossal Duct Cyst. Arch Otolaryngol Head Neck Surg April 2002;128:464
- [14] Thompson LD, Herrera HB, Lu SK. Thyroglossal Duct Cyt Carcinomas: A Clinicopathologic Series of 22 Cases with Staging Recommendations. Head Neck Pathol 2016
- [15] Wood CB, Bigcas JL, Alava I, et al. Papillary-Type Carcinoma of the Thyroglossal Duct Cyst: The Case for Conservative Management. Ann Otol Rhinol Laryngol 2018;127:710
- [16] Luna-Ortiz K, Hurtado-Lopez LM, Valderrama-landaeta LV, Ruiz-Vega A. Thyroglossal Duct Cyst with Papillary Carcinoma: What Must be done? Thyroid 2004;14 (5) www.medscape.com
- [17] Alves A, Santos L, Curralo JM, Silva N, Leite M, Moreira M, Serra R. Carcinoma papilar num quisto do canal Tiroglossa. Arq Port Cirurgia, Nov 1998;7(4):198-201

### *Correspondência:*

FLORINDA CARDOSO

e-mail: florindapaula@hotmail.com

### *Data de recepção do artigo:*

26/04/2018

### *Data de aceitação do artigo:*

22/06/2019



# Gut mediated syncope

## Síncope de causa intestinal

*Pedro Azevedo<sup>1</sup>, Marta Custódio<sup>2</sup>, Carolina Sequeira<sup>2</sup>, Anabela Salgueiro Marques<sup>3</sup>*

<sup>1</sup> Interno do Ano Comum

<sup>2</sup> Interno Formação Específica em Medicina Interna

<sup>3</sup> Assistente Graduada Medicina Interna

Hospital de Cascais Dr. José de Almeida, Serviço de Medicina Interna

### RESUMO

O tumor do estroma gastrointestinal (GIST) é um tumor mesenquimatoso, de ocorrência rara (0,1-3% de todos os tumores gastrointestinais), sendo mais vezes diagnosticados no estômago e intestino delgado. Na maioria dos casos, o GIST é causado por uma mutação com ganho de função do gene *KIT*, originando uma proliferação anormal de células intersticiais de Cajal. Reportamos o caso de um homem de 74 anos, com antecedentes de cardiopatia isquémica, duplamente antiagregado, que recorreu ao hospital após episódio de síncope. O exame físico foi inespecífico e os seus exames apenas revelaram anemia ferropénica (9,2 gr/dL). A investigação diagnóstica subsequente mostrou um adenoma do cólon que foi excisado endoscopicamente. Apresentou novo episódio de síncope, associado a descida aguda da hemoglobina (4,5 gr/dL), sem evidência clínica das perdas hemáticas. Repetiram-se os estudos (endoscópicos e tomografias), que foram negativos. Realizou, entretanto, estudo por videocápsula que revelou uma massa no jejuno, que foi excisada cirurgicamente confirmando o diagnóstico de GIST como a verdadeira causa da anemia e das síncope. Passado um ano, o doente encontra-se sob *imatinib*, sem qualquer evidência de recidiva. Faz-se uma breve revisão do tema a propósito deste caso clínico. O diagnóstico do GIST nem sempre é linear. Manifestam-se usualmente por hemorragia gastrointestinal e anemia, sendo maioritariamente detectados em exames endoscópicos ou pela tomografia computadorizada. Sempre que possível, a ressecção cirúrgica completa é o tratamento de eleição, com tratamento adjuvante com *imatinib* em doentes de alto risco. Perante um GIST irressecável ou cuja excisão pode resultar em grande morbilidade, o *imatinib* também é usado como neoadjuvante. No caso de doença metastática avançada, o tratamento é feito apenas com inibidores da tirosina-cinase, ficando a cirurgia para algumas das complicações.

**Palavras-chave:** tumor estroma gastrointestinal, síncope, *imatinib*.

### ABSTRACT

Gastrointestinal stromal tumor (GIST) is a rare mesenchymal tumor (0,1-3% of all gastrointestinal tumors), mostly found in the stomach and small intestine. In most cases, GIST is caused by a gain-of-function mutation in *KIT* gene, resulting in an abnormal proliferation of interstitial Cajal cells. We report the case of a 74-year-old man, with a history of ischemic heart disease, under double antiaggregation, who went to the hospital after an episode of syncope. Physical examination was unremarkable, and his exams only revealed an iron deficiency anemia (9.2 g/dL). Subsequent diagnostic investigation showed a colon adenoma that was excised endoscopically. He presented a new episode of syncope, associated with acute hemoglobin decrease (4.5 g/dL), without clinical evidence of blood loss. We repeated the studies (endoscopic and tomography), which were negative. In the meantime, a videocapsule study was performed, which found a mass in the jejunum, surgically excised, confirming the diagnosis of GIST; the true cause of anemia and syncope. One year passed, our patient is taking *imatinib*, with no evidence of relapse. Presenting this case report, we do a brief review of this theme. The diagnosis of GIST is not always linear. They are manifested mainly by gastrointestinal hemorrhage and anemia, and most are detected in endoscopic examinations or by computed tomography. Whenever possible, complete surgical resection is



the treatment of choice, with adjunctive treatment with *imatinib* in high-risk patients. In the presence of an unresectable GIST or whose excision may result in great morbidity, *imatinib* may also be used as neoadjuvant. In advanced metastatic disease, treatment is only done with tyrosine-kinase inhibitors, and surgery is done only for some of the complications.

**Keywords:** *gastrointestinal stromal tumor, syncope, imatinib.*

## INTRODUCTION

Gastrointestinal stromal tumor (GIST) is a mesenchymal tumor arising from the interstitial cells of Cajal, which have a pacemaker function in the *muscularis propria* of the gastrointestinal (GI) tract and myenteric plexus, promoting peristalsis.<sup>1</sup> Although being the most common mesenchymal tumor, they only account for 0,1-3% of all GI tumors.<sup>2</sup> The mean annual incidence is 10-15 cases per million people, with a median age at diagnosis of 60-65 years-old.<sup>3,4</sup>

Authors present this case report of a GIST, with an atypical presentation, doing a brief review of this subject. The presence of a synchronous colonic adenoma obscured the main diagnosis. The finding of a second tumor in sporadic GIST, albeit rare and usually incidental, is being more frequently found in the literature.<sup>5</sup>

## CASE REPORT

Seventy-four-year-old male patient, with history of type 2 diabetes and diffuse arterial disease with important stenosis of visceral and coronary arteries, under double platelet antiaggregation with acetylsalicylic acid 150 mg and clopidogrel 75 mg daily, arrived to the emergency department after an episode of sudden post prandial epigastric pain, followed by syncope. When he regained consciousness, he had an episode of alimentary vomit, with complete pain relief. The physical exam was unremarkable as the patient had a soft, non-tender abdomen, without any palpable masses, and rectal examination was inconspicuous. The first analytic studies showed a microcytic hypochromic anemia (hemoglobin of 9.2 g/dL), with confirmed ferropenia,

with no elevation of troponin. Electrocardiogram (ECG) and 24-hour holter-ECG had no pathological findings and computed tomography (CT) scan was negative for pulmonary embolism.

Endoscopic studies were performed. A 2 cm high-grade dysplasia tubulovillous adenoma was found in the sigmoid colon, which was endoscopically removed without complications.

Ten days after discharge the patient remained asymptomatic and had hemoglobin of 9.1 g/dL. However, three days later, patient had another syncope episode, with a hemoglobin drop to 4.5 g/dL, which led to transfusion support. There was no visible blood loss, either in physical examination and nasogastric intubation. Abdominal CT scan excluded retroperitoneal hemorrhage and repetition of endoscopic studies did not show signs of acute hemorrhage. Afterwards, an endoscopic videocapsule was performed, which displayed a jejunal nodular lesion occupying half of the perimeter of the organ with a central ulceration (image 1).

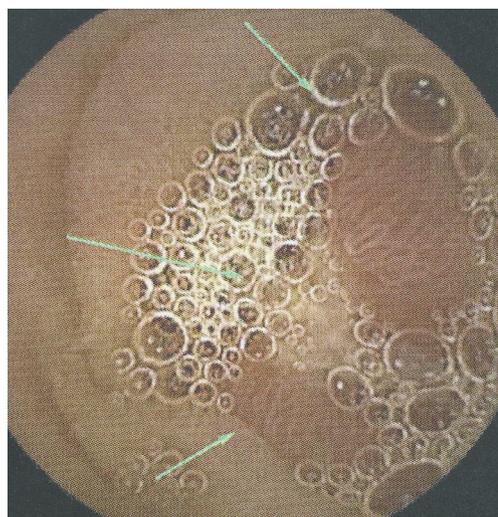


IMAGE 1 – Endoscopic videocapsule – jejunal nodular lesion occupying half of the perimeter of the organ with central ulceration.



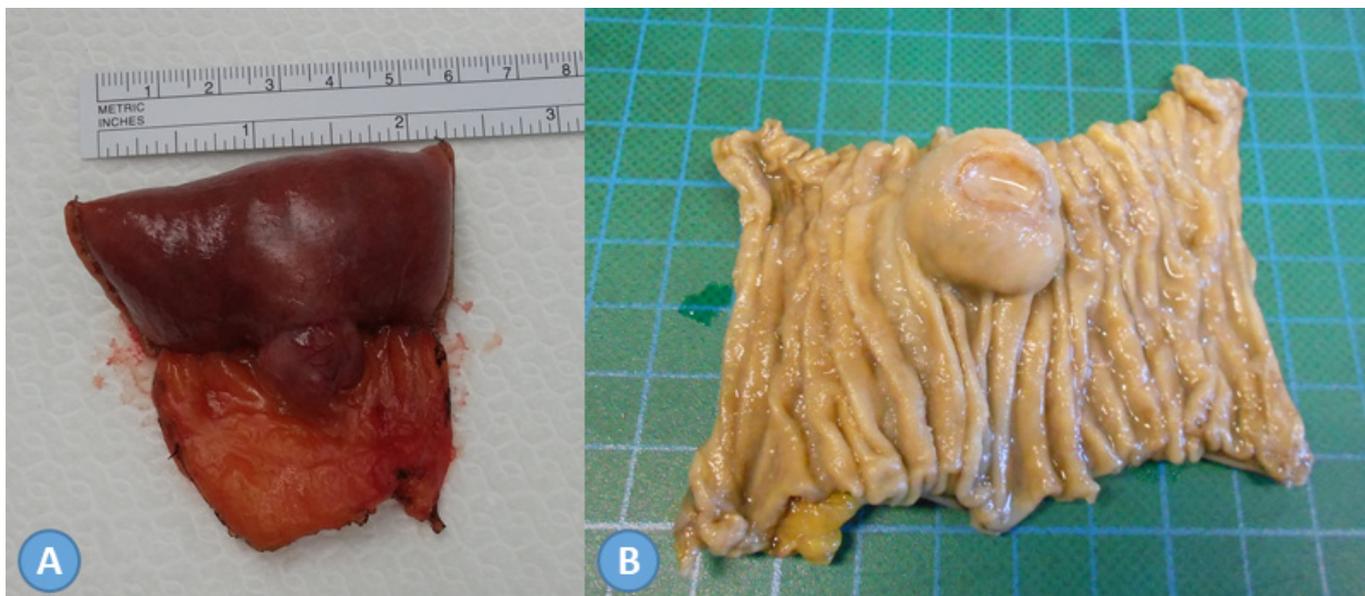


IMAGE 2 – Macroscopic aspect of the surgical specimen: outer view (A); inner view, noting the central ulceration (B).

The patient underwent surgery and, through a mini-laparotomy, segmental jejunal resection was performed (image 2A, 2B). The post-operative period was uneventful, and the patient was discharged four days after the procedure.

Pathology examination revealed a spindle cell type tumor (2,1x2,3 cm) with positive actin, CD117 and CD34, but negative S100, NSE and desmin; with 10 mitosis per 50 high-power fields (HPF), consistent with high-risk GIST. Mutation in exon 11 of *KIT* gene was confirmed (image 3).

The patient remained asymptomatic and began therapy with *imatinib* 400 mg a day. Since the patient had surgery, about a year ago, the surveillance scans show no evidence of reoccurrence of the disease.

## DISCUSSION

GIST presents, most commonly, with upper GI bleeding and anemia and sometimes with abdominal pain, early satiety, a palpable mass or constitutional symptoms (fatigue, anorexia and weight loss). However, small bowel GIST may be clinically silent for a long time and present acutely with bleeding or perforation.<sup>3</sup>

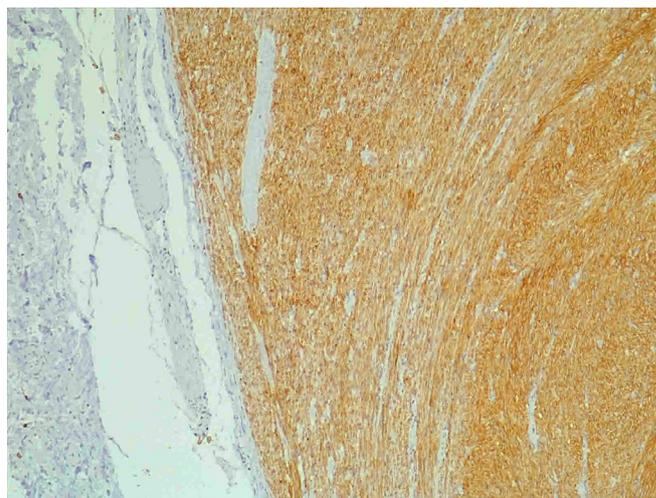


IMAGE 3 – Immunohistochemical – Microscopic view of the tumor with spindle cell patterns, with CD117 positive staining (light brown areas) (x200).

Approximately in one-third of GIST cases, the tumor is found incidentally during surgery or in studies for other diseases.<sup>6</sup> In this case, syncope was the main symptom: the first episode seemed to be due to a vasovagal response to pain and the second one secondary to acute anemia, even without other clinical evidence.

GIST is more frequently found in the stomach (60%), followed by the small bowel (30%), duodenum (5%), colorectum (4%) and rarely in esophagus and appendix.



Extra-GI locations include omentum, mesentery, retroperitoneum and bladder, where KIT positive mesenchymal cells are found.<sup>1,7</sup>

GIST is found either in a CT scan or in an endoscopic study as a sub mucosal tumor. Histological diagnosis can be made by ultrasound guided fine-needle aspiration or surgically.<sup>7,8</sup> For a primary resectable lesion, suspicious for GIST, not requiring neoadjuvant therapy, a preoperative biopsy is not usually needed. It may be useful for unresectable or marginally resectable tumors, because preoperative therapy is needed in those situations, and for excluding diseases that are approached differently (i.e. non-operatively), like lymphomas. Preoperative biopsy may rupture a suspected GIST, therefore risking tumoral cell seeding.<sup>6</sup>

Histologically, there are three types of GIST: spindle cell (70%), epithelioid (20-25%) and mixed (5-10%).<sup>1</sup>

The growth and survival of interstitial cells of Cajal depends on stem cell factor, which is the cytokine that is regulated through KIT kinase (or CD117), the protein expressed by the *KIT* gene. CD34 and DOG1 are other markers also present in GIST.<sup>1</sup> Most of GIST (95%) have a gain-of-function mutation in *KIT* – exon 11, which results in ligand-independent kinase activation. However, some tumors lack *KIT* mutations and have mutations in other genes (*PDGFRA*, *BRAF* or *KRAS*).<sup>1</sup> Small bowel GIST is mostly spindle cell type and KIT-positive (about 98%).<sup>9</sup>

The differential diagnosis of GIST includes smooth muscle and neurogenic tumors, fibromatosis, lymphoma and melanoma. Immunohistochemistry is helpful for differentiating them.<sup>1,3</sup>

Molecular analysis of *KIT* and *PDGFRA* is useful in confirming the diagnosis in dubious cases and in establishing the therapeutic regimen, as tumors with *KIT* exon 11 mutation are much more likely to respond to *imatinib* therapy than tumors with other *KIT* mutations and D842V *PDGFRA* mutation.<sup>1</sup>

GIST is usually considered malignant, despite having various levels of aggressiveness. About 10% of patients have metastatic disease at presentation, which is more common in the liver and peritoneum; while lymphatic, bone and extra-abdominal metastasis are rare.<sup>2,10</sup>

Although some GIST may be found in the context of germline mutations that predispose patients to multiple types of neoplasms, like in gene *NFI*, in the succinate dehydrogenase complex or *KIT*, most of GIST are sporadic. However, it is increasingly reported the synchronous presentation of GIST with other tumors, mostly GI (gastric and colon), pancreatic and hepatic carcinomas, as well as lymphoproliferative disorders, breast, lung or gynecological carcinomas and even kidney neoplasms.<sup>5,11</sup> Our patient had a synchronous high-grade dysplasia colonic tubulovillous adenoma.

Unlike most tumors, TNM (tumor, node, metastasis) is not used for staging GIST and for risk assessment, instead, other features are used: mitotic index (number of mitosis per 50 HPF), tumor size and primary site.<sup>3</sup> The Memorial Sloan Kettering Cancer Center developed a nomogram using those features to predict the risk for tumor recurrence after surgical excision of a localized primary GIST.<sup>12</sup> Using this tool in our case, the probability of recurrence-free survival is about 26% at 2 years and 7% at 5 years<sup>1</sup>. Overall, gastric GIST has a lower risk of recurrence, as well as tumors with a mitotic index of 5 or lower and GIST smaller than 5 cm.<sup>3,4,9</sup> Small bowel GIST have a more malignant progression than gastric ones, with a 40-50% tumor-related mortality.<sup>9</sup>

Complete surgical tumor excision is the only potentially curative treatment, despite almost half the high-risk patients have recurrent or metastatic disease after resection. Regarding localized disease amenable to resection, all GIST 2 cm or greater should be excised. Since small bowel and colonic GIST are more aggressive, these tumors should be resected regardless of the size.<sup>13</sup> Surgery should be followed by adjuvant therapy with tyrosine kinase inhibitors (TKI), such as *imatinib* for at least 3 years in high-risk patients.<sup>3,4,13</sup> Disease progression or reoccurrence under *imatinib* or intolerance to its side effects is the indication for *sunitinib* treatment.<sup>8</sup> For tumors resistant to both *imatinib* and *sunitinib*, *regorafenib* is an option.<sup>13</sup>

<sup>1</sup> Tool available at [https://www.mskcc.org/nomograms/gastrointestinal/stromal\\_tumor](https://www.mskcc.org/nomograms/gastrointestinal/stromal_tumor)



If a tumor-free margins resection is unlikely without major sequelae or if there is a high risk of intraoperative tumor rupture or bleeding, neoadjuvant therapy should be considered.<sup>3</sup> *Imatinib* should be stopped 24 hours before surgery and therapy can be restarted when the patient starts having a regular diet. Since *sunitinib* interferes with the healing process, it should not be taken 5 to 7 days before surgery until two weeks after the procedure.<sup>13</sup>

In metastatic disease, *imatinib* treatment should be carried on indefinitely because therapy interruption is generally followed by relapse.<sup>14</sup> The role of surgery in metastatic disease is more limited, but it has been shown that it may improve patient outcome in stable and in TKI-responsive metastasis and in progressive oligometastatic disease. For multifocal progressive disease, surgery should not be performed, unless complications, such as bleeding, obstruction or perforation are present.<sup>13</sup>

GIST follow-up should be done with abdominopelvic contrast-enhanced CT scan or magnetic resonance imaging. For low risk GIST, annual CT scan abdomen is recommended for 5 years. For high-risk patients, during *imatinib* treatment, it is advised abdominopelvic CT scan every 6 months and every 3-4 months for the

first 2 years after discontinuation of therapy and then every 6-12 months for 10 years.<sup>8,10</sup>

## CONCLUSION

Ferropenic anemia without an obvious cause in the elderly patient should raise the suspicion for a gastrointestinal neoplasm. In this case, GIST was the cause of an occult gastrointestinal bleeding with syncope as presentation, but without clinical evidence of blood loss, which diffculted the diagnosis. Surgery is the only potentially curative treatment for this disease and, many times, it serves diagnostic purposes as well, as preoperative biopsy is not always possible or even indicated.

## ACKNOWLEDGEMENTS

We thank surgical team, Júlio Ribeiro and Carlos Martins, for performing the surgical resection of the tumor and pathologist Isabel Serrano, for the analysis of the pathological specimen.



## REFERENCES

1. Zhao X, Yue C. Gastrointestinal stromal tumor. *J Gastrointest Oncol* 2012;3(3):189-20.
2. Ertuk M, Van Der Abbeele A. Infrequent Tumors of the Gastrointestinal Tract Including Gastrointestinal Stromal Tumor (GIST). *PET Clin 3* (2008) 207-215.
3. Judson I, Bulusu R, Seddon B, et al. UK clinical practice guidelines for the management of gastrointestinal stromal tumors (GIST). *Clin Sarcoma Res* (2017) 7:6.
4. Rutkowski P, Przybyl J. Extended Adjuvant Therapy with Imatinib in Patients with Gastrointestinal Stromal Tumors. *Mol Diagn Ther* (2013) 17:9-19.
5. Efsthios P, Athanasios P, Papaconstantinou I, et al. Coexistence of a gastrointestinal stromal tumor (GIST), and colorectal adenocarcinoma. A case report. *World J Surg Oncol* 2007, 5:96.
6. Keung E, Raut C. Management of Gastrointestinal Stromal Tumors. *Surg Clin N Am* 2017; 97: 437-452
7. Nishida T, Blay J, Hirota S. The standard diagnosis, treatment and follow-up of gastrointestinal stromal tumors based on guidelines. *Gastric Cancer* (2016) 19:3-14.
8. Lanke G, Lee J. How to best manage gastrointestinal stromal tumor. *World J Clin Oncol* 2017 April 10; 8(2): 135-144.
9. Miettinen M, Lasota J. Gastrointestinal stromal tumors: pathology and prognosis at different sites. *Semin Diagn Pathol* 2006;23:70-83.
10. Joensuu H, Martin-Broto J, Nishida T, et al. Follow-up strategies for patients with gastrointestinal stromal tumour treated with or without adjuvant imatinib after surgery. *Eur J Cancer* 2015; 51: 1611-1617
11. Hechtman J, DeMatteo R, Nafa K, et al. Additional Primary Malignancies in Patients with GIST: A Clinicopathologic Study of 260 Patients with Molecular Analysis and Review of the Literature. *Ann Surg Oncol*. 2015; 22(8):2633-9
12. Chok A, Goh B, Koh Y, et al. Validation of the MSKCC Gastrointestinal Stromal Tumor Nomogram and Comparison with Other Prognostication Systems: Single-Institution Experience with 289 Patients. *Ann Surg Oncol* 2015; 22: 3597-3605
13. Schrage Y, Hartgrink H, Smith M, et al. Surgical management of metastatic gastrointestinal stromal tumor. *Eur J Surg Oncol* 2018; 44: 1295-1300
14. Mehren M, Liu Y. Randomized Clinical Trials in Gastrointestinal Stromal Tumors. *Surg Oncol Clin N Am* 2017; 26: 545-557

### *Correspondência:*

PEDRO AZEVEDO  
e-mail: azeved@hotmail.com

### *Data de recepção do artigo:*

17/08/2018

### *Data de aceitação do artigo:*

12/11/2019



# Ruptura testicular associada a lesão desportiva

## Testicular rupture after sports injury

Margarida Manso<sup>1</sup>, João Silva<sup>1,2</sup>, Francisco Cruz<sup>1,2,3</sup>

<sup>1</sup> Serviço de Urologia, Centro Hospitalar São João, Porto, Portugal

<sup>2</sup> Faculdade de Medicina da Universidade do Porto, Porto, Portugal

<sup>3</sup> i3S Institute for Innovation and Health Research

### INTRODUÇÃO

O trauma génito-urinário é observado em ambos os sexos e em todas as faixas etárias. De todas as lesões urológicas, 33% a 66% envolve os genitais, sendo mais comum em homens entre os 15 e os 40 anos, devido a uma maior exposição anatómica e a uma maior prática de desportos de contacto. Uma grande percentagem (75-80%) do trauma genital é não penetrante; contudo, mesmo nestes casos, a possibilidade de lesão testicular importante, com ruptura da túnica albugínea, deve ser considerada e activamente procurada de forma a evitar uma hipotética perda de órgão.

### OBJECTIVO

O presente caso clínico tem como objectivo evidenciar um caso típico de trauma escrotal com ruptura testicular, destacando a necessidade de uma abordagem cuidadosa *ab initio*, preservando assim a viabilidade do testículo.

### CASO CLÍNICO

Doente do sexo masculino, 34 anos, sem antecedentes de relevo, recorreu ao Serviço de Urgência por dor

### INTRODUCTION

Genito-urinary trauma is seen in both genders and in all ages. From all urological lesions, 33% a 66% affects genitalia, being more common in male between 15 and 40 years old, due to a bigger anatomical exposition and a larger practice of contact sports. A significant part (75-80%) of genital trauma is blunt; however, even in such cases, the possibility of an important testicular lesion, with rupture of the albuginea, should be considered and actively searched to avoid an hypothetically organ loss.

### OBJECTIVE

To highlight a typical case of scrotal trauma with albuginea rupture, emphasizing the need for a careful approach *ab initio*, preserving the testicular viability.

### CLINICAL CASE

A 34-year-old man, without relevant medical history, presented to the Emergency Room with severe testicular pain. Two days before, he had had a scrotal trauma during a combat sport. Physical





IMAGEM 1 – Equimose escrotal ao exame físico

testicular intensa. Há dois dias tinha sofrido traumatismo escrotal durante desporto de combate.

Ao exame físico apresentava equimose escrotal à direita (imagem 1), edema escrotal ligeiro, testículo direito doloroso à palpação, sendo perceptível descontinuidade da sua superfície.

A ecografia escrotal mostrou: “Testículos assimétricos por aumento das dimensões do direito, observando-se heterogeneidade do seu terço inferior com dismorfia e irregularidade dos contornos, sugerindo no contexto ruptura da albugínea.”; testículo esquerdo sem alterações.

Por suspeita de ruptura da túnica albugínea do testículo direito, o doente foi proposto para exploração cirúrgica. Durante a cirurgia foi identificada laceração exuberante com *exteriorização de polpa testicular* (imagem 2). Foi removida a polpa testicular exteriorizada e a túnica albugínea foi rafiada (imagem 3) com sutura contínua absorvível 3/0. Não foi deixado dreno e, após encerramento, foi realizado penso compressivo. O doente teve alta no dia seguinte, apresentando uma excelente evolução na consulta de reavaliação, sem queixas ou alterações de relevo no exame físico.



IMAGEM 2 – Ruptura da albugínea com exteriorização de polpa testicular



IMAGEM 3 – Testículo rafiado.

examination revealed a scrotal ecchymosis (image 1), mild scrotal edema and a painful right testicle, being perceptible a heterogeneous surface. Scrotal echography showed augmented dimension of right testicle, with irregularity of its contours in the distal third, suggesting rupture of the albuginea; left testicle without abnormalities. Regarding the possibility of a disrupted albuginea, the patient was submitted to a surgical exploration of the scrotum. During surgery, an exuberant laceration was identified, with exteriorization



## DISCUSSÃO

As lesões escrotais *minor*, sem ruptura testicular, podem ser tratadas de forma conservadora com medidas posturais, gelo e terapêutica analgésica e antiinflamatória. Quando há evidência ecográfica de descontinuidade da túnica albugínea, ou por outro lado esta não é excluída inequivocamente, a exploração cirúrgica é mandatória. Neste caso, por se tratar de um traumatismo ocorrido há dois dias, com um exame objectivo pouco exuberante, poderia ter sido erroneamente desvalorizado, sendo omitida a ecografia escrotal, e sendo tratado de forma conservadora. Acertadamente, foi solicitada ecografia que revelou uma provável lesão que, intra-operatoriamente, se revelou significativa. Não obstante, a túnica albugínea deve ser encerrada após remoção da polpa testicular necrótica ou exteriorizada, mesmo que o defeito seja pequeno. A reparação cirúrgica promove, assim, a preservação de tecido testicular ao impedir que este seja exteriorizado de forma contínua pela pressão intra-testicular, previne a infecção e controla potenciais hemorragias. O objectivo último é a preservação do testículo que, quando atempadamente tratado nas primeiras 72 horas após a lesão, tem taxas de conservação de cerca de 90%.

## CONCLUSÃO

Apesar do traumatismo escrotal ser comum, sobretudo como lesão desportiva em homens jovens, a ruptura testicular é relativamente rara, devendo ser prontamente identificada, de forma a poder ser efectuada sua correcção cirúrgica precoce.

of testicular pulp (image 2). The exteriorized pulp was removed and the albuginea was closed (image 3) with continuous absorbable 3/0 suture. No drain was left in place and, after closure, it was performed a compressive dressing. The patient was discharged in the next day, presenting an excellent evolution in follow-up visit, without complaints or alterations in physical examination.

## DISCUSSION

*Minor* scrotal lesions, without testicular rupture, may be managed conservatively with postural measures, ice and analgesic drugs. When there is an evidence or suspicion in the ultrasound of albuginea disruption, surgical exploration is mandatory. In this case, all diagnostic steps were correctly performed, leading to an intraoperative evidence of a significant lesion. Nevertheless, the tunica albuginea should be closed after excision of any necrotic or extruded testicular tissue, even when the defect is small. The surgical repair promotes, therefore, the testicular tissue preservation, prevents infection and controls potential bleeding. The final objective is the salvage of testicle which, when promptly treated in the first 72 hours after lesion, is preserved in 90% of the cases.

## CONCLUSION

Despite scrotal trauma being common, mostly as sports injury in young men, testicular rupture is relatively rare and must be promptly identified so its early surgical management can be performed.

*Correspondência:*

MARGARIDA MANSO

e-mail: manso.margarida@gmail.com

*Data de recepção do artigo:*

11/03/2018

*Data de aceitação do artigo:*

16/06/2019





# O Erro em Medicina

## The Error in Medicine

*Carlos M. Costa Almeida*

Director de Serviço de Cirurgia do CHUC-Hospital Geral (Covões), Professor da Faculdade de Medicina de Coimbra

Errar é humano, e como tal todos podemos errar e esperar desculpa por isso, se o erro não tiver sido intencional ou doloso. O problema é quando desse erro tiver resultado algum inconveniente, ou transtorno, para outrem, que aparece então como vítima ocasional. Mas em Medicina nem sempre é fácil definir o que é erro, e a sua percepção é seguramente diferente dos médicos para os doentes. Para estes, basta que o resultado do que o médico fez não seja tão bom como o esperado para o espectro do erro surgir de imediato. E os médicos, pelo contrário, sabem que nem sempre os erros têm maus resultados. São bem conhecidos os aforismos da prática médica segundo os quais “um erro por não ter mau resultado não deixa de ser um erro”, e “há médicos que têm êxitos que não merecem”. Por outro lado, frequentemente o que as pessoas pensam ser um erro médico é, antes, um efeito adverso duma conduta adequada, uma intercorrência médica, ou então um acidente, que não são da responsabilidade de ninguém porque não houve qualquer falha. Isto porque a prestação de cuidados de saúde é uma actividade complexa, incerta no resultado e com reconhecido potencial para causar danos colaterais nos doentes, embora estes tendam a não aceitar essa realidade. Seria bom terem a noção de que se um hospital é um local para tratamento de doenças, também é um local para as contrair.

Mas, afinal, o que é um erro médico? Pode-se definir primariamente como uma conduta profissional

inadequada (em desacordo com as *leges artis*), por acção ou omissão, e que supõe a inobservância de regras técnico-científicas, com produção de danos à vida ou à saúde de alguém, sem intenção de os produzir. Esta definição pode, no entanto, ser sujeita a discussão, desde logo porque exclui condutas daquele tipo cujo resultado não constitua dano para o paciente. E quanto ao não seguimento das regras técnicas e científicas, sendo a ciência caracterizada pela incerteza, e pela mudança, nem sempre será fácil determinar que elas não foram realmente seguidas.

Se há situações em que o erro é óbvio, como amputar o membro errado ou deixar uma compressa esquecida no abdómen, há outras em que não é assim tão fácil de o considerar. O tipo de tratamento cirúrgico escolhido para um determinado caso, a técnica utilizada, os meios de diagnóstico usados, por exemplo, poderão eventualmente ser considerados errados por uns e não por outros, e já vimos que nem sempre o resultado obtido faz a diferença. E para que um mau resultado leve à conclusão da existência de erro prévio, é preciso estabelecer-se um nexos de causalidade com o que foi feito, sendo inequivocamente excluídas como causas todas as possíveis variantes da evolução clínica, e atentas as condições particulares do caso em cada momento.

Frequentemente se fazem sobrepor as designações “erro” e “negligência”, mas não são exactamente a mesma coisa. Isto é, considera-se negligência um erro



particular, em que à violação das *leges artis* se junta um comportamento do profissional que configura uma falta ao “dever de cuidar”. Quer dizer, em que o profissional tenha mostrado falta de cuidado para com o paciente, e não tenha feito por ele tudo o que era suposto fazer naquelas circunstâncias, e da melhor maneira. Também aqui é necessário fazer corresponder os danos no paciente à actuação do profissional, e excluía alguma falta de condições da instituição de saúde, por exemplo organizativas ou técnicas, que não lhe permitisse actuar doutro modo

“Erro médico” não significa forçosamente erro do médico, mas sim de qualquer profissional ligado à saúde, ou que é da responsabilidade global duma instituição médica. É algo que, obviamente, preocupa todos os médicos e restantes profissionais envolvidos, bem como as instituições onde trabalham, e um estudo do Eurobarómetro da Comissão Europeia mostrou que cerca de 50% dos portugueses têm receio de vir a ser vítimas dum erro médico, embora só 16% declarem ter já sofrido algo que classificaram desse modo. Esta discrepância de números pode traduzir algum destaque exagerado que a comunicação social tem dado ao assunto entre nós, mas nos EUA o erro médico é anunciado como 6ª causa de morte. As especialidades em que ele é mais vezes invocado são a Obstetrícia, a Ortopedia, a Cirurgia Geral, a Ginecologia, a Oftalmologia e a Medicina Interna.

Sendo verdade que todos podemos numa dada altura errar, há um conjunto de situações que levam a que o erro aconteça mais facilmente. Para começar, essa possibilidade aumenta com a menor experiência do profissional, e menos conhecimentos técnico-científicos, ou falta de perícia técnica, sobretudo se em associação com imprudência e inconsciência, por não reconhecimento das próprias limitações. Há quem, por palavras simples, aponte três mecanismos principais para o erro médico: a negligência (não fazer o que devia ser feito), a imprudência (fazer o que não devia fazer), e a imperícia (fazer mal o que devia fazer).

Também o excesso de trabalho, a falta de tempo para o executar como deve ser, o cansaço durante a

sua execução, a falta de horas de sono, são factores que podem ser determinantes.

Pode-se errar por simples falta de atenção, eventualmente num acto que se considera mais rotineiro, ou menos importante, mas o erro tem maior probabilidade de acontecer em casos mais difíceis e complexos. Muitas vezes por deficiência de registo do que se fez e do que se pretende fazer, do plano estabelecido para o doente, e por falta de comunicação entre os profissionais que se afadigam à volta dele. E o *stress*, sentido em momentos cruciais que obrigam a decisões quase imediatas, ou com muitos prós e muitos contras, predispõe claramente para a ocorrência de erro.

Na prevenção do erro, a existência de protocolos de actuação em várias situações mais frequentes, libertando a atenção e o raciocínio, quer nos casos mais simples quer nos mais exigentes, pode ser eficaz. Mas lembrar o erro é crucial para o evitar. É importante termos sempre presente a sua possibilidade, desse modo procurando evitar todas as situações que o facilitam. Também é eficaz haver nos hospitais revisões de morbi-mortalidade em que sejam identificados e discutidos erros eventualmente cometidos, não com intuito punitivo mas didáctico e de prevenção. E tem sido advogada, nomeadamente pela Comissão Europeia, a publicação periódica oficial de erros, juntamente com incidentes e acidentes (como no programa *Notific@*, da nossa DGS), de forma a todos aprenderem com a experiência de todos, e assim possibilitar a implementação de medidas que impeçam a repetição desses eventos. O problema com estas duas últimas medidas é que podem ser entendidas como reconhecimento de culpa, e por isso ser usadas para processar os profissionais ou/e as instituições em causa.

Mas os hospitais, para combater o erro, devem fazer mais do que simplesmente confiar na capacidade dos seus profissionais para o evitar, estimular as reuniões de morbi-mortalidade, publicar listas de eventos adversos e erros e estabelecer protocolos de actuação: têm de olhar pelas condições de trabalho que proporcionam, a qualidade do material que fornecem, a sua organização clínico-administrativa. Porque tudo isso, se insuficiente,



pode levar ao erro, e ser julgado como negligência dele causadora.

E o que deve fazer um cirurgião quando o erro ou o acidente cirúrgicos acontecem? Antes de mais deve reconhecer o que aconteceu, e enfrentar a situação. E procurar resolvê-la, de imediato se for possível. Qualquer cirurgião tem de ter os conhecimentos teóricos e o *know-how* técnico necessários para corrigir as complicações que resultarem da sua actividade cirúrgica. Será imprudente que opere sem os ter, dependendo então em absoluto doutros colegas, que podem estar ou não ao seu alcance imediato quando forem necessários; mas a quem ele não deve hesitar em pedir ajuda se achar que precisa, ou que o doente precisa, para o melhor resultado possível. Aliás, a boa regra é quem comete um erro pedir sempre ajuda a um colega em quem confie, mesmo que tenha a capacidade para o corrigir: alguém não comprometido com o acontecido, sem essa preocupação, estará seguramente de cabeça mais desanuviada, com o raciocínio mais limpo, e a sua intervenção será do maior valor, mesmo que seja só para dar uma opinião.

Não dar conta do erro cometido é mau, mas dar e fazer de conta que não aconteceu é pior. Não fazer nada na esperança que passe despercebido, agravando as consequências do evento, entra directamente no campo da negligência pura e dura. A tentativa de esconder o sucedido, se tiver consequências deletérias para o paciente, é criminosa. Se cometeu um erro tem de o assumir e procurar resolvê-lo, na medida do possível.

Outro aspecto importante é se o cirurgião deve ou não comunicar sempre o erro ao doente. Em acidentes ou erros sem resultados nefastos essa questão não se põe: dá-los a conhecer ao doente seria inútil e contraproducente, por gerar sofrimento psicológico desnecessário. Nos outros casos, creio que será uma questão de bom senso, dentro da empatia que deve estar na base da relação do médico com o doente, e orientada no sentido da melhor resolução possível da situação.

Os acidentes previamente considerados possíveis, tenham sido dados especificamente a conhecer ao doente, aquando da obtenção do seu consentimento

informado, ou não, por entrarem no grupo das complicações cirúrgicas gerais, não colocam problemas. Os erros sim. É sabido que é mais fácil os doentes não os aceitarem se a sua relação com o médico não for boa, ou se se deteriorar na altura. É fundamental por isso procurar preservá-la, escolhendo judiciosamente o que dizer ao doente, quer em termos de forma quer de conteúdo, tendo sempre presente que o paciente tem o direito de saber o que lhe aconteceu. Mantê-lo ostensiva e agressivamente na ignorância é mau, como pode ser comunicar-lhe o sucedido de forma fria e quase impessoal, como se fosse algo que não diz respeito ao médico ou que não o incomoda. Informá-lo, assumindo que algo correu mal mas que se vai fazer, em conjunto com ele e por causa dele, todo o esforço para resolver o assunto, ou pelo menos diminuir os estragos, é em geral a melhor atitude. O envolvimento da família mais chegada também pode ser útil para reduzir a ansiedade do próprio paciente.

Há quem advogue um distanciamento do doente e da sua família por parte do médico – com o que não concordo, como digo atrás –, bem como do seu advogado – o que já acho bem: a ser necessário, serão os advogados a contactar uns com os outros. Há também quem, valorizando a preservação da relação médico-doente, insista em que o médico, ao assumir o erro, deve pedir desculpa ao paciente por ele. Podendo haver situações extremas que o justifiquem, não parece que na maior parte dos casos isso seja razoável, desde logo porque não vai ajudar em nada a manter uma boa relação do doente para com o médico, indo minar ainda mais a sua confiança (já de si abalada pelo sucedido) no que continua a ser o seu médico, e depois porque esse pedido poderá ser usado como reconhecimento liminar de culpa num processo legal que venha a ser levantado.

Em resumo, o erro médico pode acontecer a qualquer um, em situações complicadas como em situações simples, e a possibilidade da sua ocorrência deve estar sempre presente, o que ajuda a evitá-lo. Como ajuda a enumeração periódica dos erros e a avaliação das condições em que se produziram, levando a que sejam tomadas, quer pelos profissionais quer pelas instituições,



medidas que os possam evitar. Quando sucedem têm de ser reconhecidos e as suas consequências enfrentadas e minoradas ou eliminadas, devendo o médico causador

envolver-se decisivamente na sua resolução e envolver também o doente, procurando preservar a relação profissional entre os dois.

*Correspondência:*

CARLOS COSTA ALMEIDA

e-mail: c.m.costa.almeida@gmail.com



*Carlos Costa Almeida*



