

## Case report/Caso clínico

## A case of follicular variant of papillary thyroid carcinoma in a mature cystic teratoma in a young woman

### Um caso de variante folicular do carcinoma papilar da tiróide num teratoma quístico maduro numa mulher jovem

Gonçalo Dias\*, Filipa Caeiro\*, Teresa Diniz da Costa\*\*, Amélia Pedro\*\*, José Silva Pereira\*\*\*  
Hospital Prof. Dr. Fernando Fonseca, E.P.E.

#### Abstract

Malignant transformation of a teratoma occurs in 1-2% of cases, with carcinoma of the thyroid being extremely rare. It is usually diagnosed in the postoperative histopathological exam. We describe a case of thyroid carcinoma in a mature cystic teratoma.

**Keywords:** Mature cystic Teratoma; Malignant transformation; Carcinoma.

#### INTRODUÇÃO

O termo teratoma deriva do grego «teras» que significa monstro<sup>1</sup>. O teratoma quístico maduro (TQM) é a doença quística do ovário mais comum em mulheres jovens<sup>2</sup>. O TQM do ovário raramente (1-2%) se transforma em tumor maligno<sup>3</sup>. Esta transformação está relacionada com a idade e é mais comum em mulheres pós-menopáusicas, sendo o carcinoma de células escamosas o tumor maligno mais frequente. O carcinoma da tiróide é extremamente raro. A transformação maligna é diagnosticada, habitualmente, no exame anátomo-patológico pós-operatório.

Os autores relatam um caso de carcinoma da tiróide que foi, inesperadamente, diagnosticado no exame histopatológico de um TQM do ovário.

#### CASO CLÍNICO

Mulher de 23 anos, com um parto eutócico, sem antecedentes pessoais ou familiares relevantes, que foi referenciada à consulta de Ginecologia da nossa institui-

ção por dor pélvica crónica, sem aparente relação com o ciclo menstrual, com cerca de 2 anos de evolução e massa anexial que a ecografia pélvica e a tomografia computadorizada sugeriam tratar-se de um teratoma do ovário esquerdo. Ao exame ginecológico, não foram identificadas alterações relevantes, nomeadamente massas anexiais anómalas. Realizou uma ressonância magnética pélvica para melhor caracterização da situação clínica que revelou na área anexial esquerda, uma formação quística heterogénea do ovário, medindo 45x40 mm de maiores eixos e com características de sinal típicas da presença de gordura, sendo compatível com teratoma. Os marcadores tumorais (CA 125 – 11 U/ml; CA19-9 – 6,1 U/ml; CEA – 0,84 U/ml) foram negativos. A doente foi submetida a laparoscopia em que a inspeção do abdómen e da pélvis demonstrou apenas um ovário esquerdo aumentado de tamanho, à custa da formação quística referida anteriormente. Realizou-se quistectomia esquerda, tendo o período pós-operatório decorrido sem intercorrências. O estudo histológico revelou tratar-se de um teratoma quístico maduro, trigerminar, com tecido tiroideu entre os vários tecidos maduros (pele e tecido cartilágneo) encontrados, com aspectos de hiperplasia do epitélio folicular tiroideu. No seio do tecido tiroideu «normal», observaram-se dois focos da variante folicular de carcinoma papilar, o maior com 3 mm (Figura 1). Atendendo a estes achados histológicos, efectuou ecografia da glândula ti-

\*Interno do Internato de Ginecologia e Obstetrícia, Serviço de Ginecologia - Hospital Prof. Dr. Fernando Fonseca, E.P.E.

\*\*Assistente Hospitalar Ginecologia e Obstetrícia, Serviço de Ginecologia - Hospital Prof. Dr. Fernando Fonseca, E.P.E.

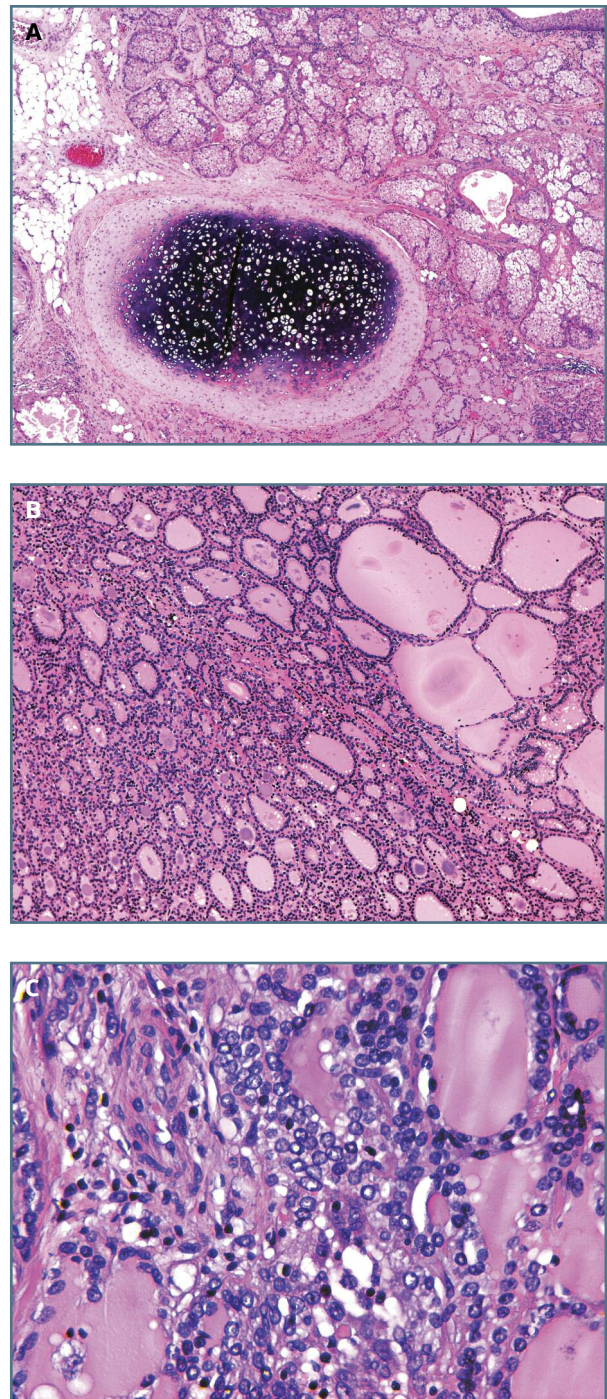
\*\*\*Director do Serviço de Ginecologia, Serviço de Ginecologia - Hospital Prof. Dr. Fernando Fonseca, E.P.E.

roideia e estudo analítico da função tiroideia (TSH – 1,038 mUI/L; FT4 – 1,10 ng/dL; tiroglobulina – 66,2 µg/L; anticorpo anti-tiroglobulina <20,0 UI/mL; anticorpo anti-peroxidase <10 UI/mL) que foram normais. Em consulta multidisciplinar decidiu-se, após consentimento informado da doente, por uma atitude expectante. A doente mantém-se em vigilância, há 9 meses, sem evidência de doença tiroideia ou ginecológica.

## DISCUSSÃO

O TQM do ovário é composto por elementos bem diferenciados das três camadas germinativas, ectoderme, mesoderme e endoderme, sendo geralmente os elementos de origem ectodérmica que predominam. O TQM compreende cerca de 20% dos tumores do ovário<sup>4</sup> e cerca de 70% das neoplasias benignas do ovário em mulheres com idade inferior a 30 anos<sup>3</sup>. A transformação maligna de teratomas é rara, ocorrendo em cerca de 1-2%<sup>3</sup> dos casos. O carcinoma de células escamosas compreende cerca de 85% desses casos<sup>1</sup>, o adenocarcinoma surge em 7%<sup>5-6</sup> enquanto o melanoma, o sarcoma, o carcinoma basocelular e o carcinoma papilar de tiróide compreendem os restantes casos<sup>7</sup>. Um único TQM contendo vários tipos de transformação maligna é muito raro. A presença de tecido tiroideu nos ovários foi descrita, pela primeira vez, por *Von Kahliden* em 1895<sup>8</sup>. O carcinoma papilar da tiróide em teratomas do ovário é uma ocorrência rara, com uma estimativa de 0,1 e 0,3%<sup>9</sup>. A transformação maligna do tecido tiroideu num TQM do ovário pode ser classificada, histologicamente, em três tipos<sup>10</sup>: o primeiro é o carcinoma papilar (44%), o segundo é o carcinoma folicular (30%), que é diagnosticado quando as células contendo figuras mitóticas apresentam folículos e existe invasão capsular ou vascular e, por último, existe a variante folicular do carcinoma papilar, que corresponde a 26% da transformação maligna e que compreende características nucleares semelhantes ao carcinoma papilar e a arquitetura do carcinoma folicular. No caso que se apresenta, trata-se de um teratoma sem predomínio de tecido tiroideu, em que o exame histológico revela uma área limitada com características típicas da variante folicular do carcinoma papilar.

Até à data, foram descritos na literatura 5 casos da variante folicular do carcinoma papilar da tiróide no TQM do ovário<sup>9</sup>. A idade média de aparecimento é 45 anos e o quadro clínico é incaracterístico, podendo as doentes apresentar dor abdominal decorrente da in-



**FIGURA 1.** Teratoma do ovário com coloração H&E; **A)** pele e tecido cartilágneo, 40x, **B)** tecido tiroideu em que é evidente a variante folicular do carcinoma papilar (células com núcleos vazios e arquitetura folicular), 100x, **C)** tecido tiroideu com a variante folicular do carcinoma papilar, 400x.

fecção, rotura ou torção do ovário, distensão abdominal pelo efeito de massa ou irregularidades menstruais<sup>11-12</sup>.

Uma vez que a ocorrência da variante folicular do carcinoma papilar da tiróide no TQM é muito rara, o diagnóstico pré-operatório é difícil de estabelecer e terá que ser baseado na idade da doente, marcadores tumorais e exames imagiológicos. Muitos estudos demonstraram que a pesquisa do antigénio SCC, isoladamente, ou em associação com outros marcadores tumorais como o M-CSF ou CEA pode ser útil na distinção entre transformação maligna e teratoma quístico benigno. O antigénio SCC é mais sensível e específico do que o CA 125 ou o CA 19-9<sup>3</sup>. Tumores com diâmetro superior a 10 cm<sup>1</sup> ou com componente sólido que apresente extensão transmural e invasão directa de órgãos pélvicos vizinhos<sup>3</sup> estão associados a risco aumentado de malignidade.

A taxa de sobrevivência das doentes com transformação maligna do TQM do ovário está dependente do estágio. Estes tumores apresentam-se, ocasionalmente, como doença localmente invasiva ou com metástases à distância.

O tratamento ideal para a transformação maligna do TQM do ovário é incerto, devido à raridade da doença<sup>9</sup>. Esta raridade faz com que não existam na literatura, estudos que refiram as melhores opções terapêuticas. O tratamento conservador é, frequentemente, oferecido às doentes mais jovens que desejam manter a sua fertilidade e que consiste em anexectomia unilateral ou quistectomia, sem terapia adjuvante. A tiroglobulina que é produzida tanto pelo tecido normal como pelo tecido patológico da tiróide, é usada como um marcador tumoral no pós-operatório. Deve-se realizar a determinação sérica da tiroglobulina de 4 em 4 meses, durante o primeiro ano após a cirurgia. Se o valor de tiroglobulina for elevado, uma cintigrafia com iodo deve ser solicitada, a fim de avaliar a recorrência da doença.

No nosso caso, atendendo à idade da doente, ao desejo de gravidez futura, ao facto de não haver indícios intra-operatórios de doença oncológica com estadiamento superior a 1A, a existência, no estudo histológico, de 2 focos de carcinoma tiroideu de dimensões microscópicas e ausência de doença tiroideia nos exames complementares de diagnóstico realizados, optou-se por uma atitude expectante, com pedido seriado (de 4 em 4 meses) de tiroglobulina e ecografia ginecológica e, 9 meses após o diagnóstico, não há qualquer evidência de recidiva ou metástase.

## REFERÊNCIAS

- Bal A, Mohan H, Singh SB, Sehgal A. Malignant transformation in mature cystic teratoma of the ovary: report of five cases and review of the literature. *Arch Gynecol Obstet* 2007; 275:179-182.
- Mori Y, Nishii H, Takabe K, Shinozaki H, Matsumoto N, Suzuki K et al. Preoperative diagnosis of malignant transformation arising from mature cystic teratoma of the ovary. *Gynecol Oncol* 2003; 90:338-341.
- Yamaguchi K, Mandai M, Fukuhara K, Higuchi T, Hamanishi J, Takakura K et al. Malignant transformation of mature cystic teratoma of the ovary including three cases occurring during follow-up period. *Oncol Rep* 2008; 19:705-711.
- Makani S, Kim W, Gaba A. Struma ovarii with a focus of papillary thyroid cancer: a case report and review of the literature. *Gynecol Oncol* 2004; 94:835-839.
- Guney M, Demir F, Ozsoy M, Kapucuoglu N. Mucinous adenocarcinoma arising from the gastrointestinal epithelium in benign cystic teratoma of the ovary—case report. *Eur J Gynaecol Oncol* 2006; 27:304-306.
- Levine DA, Villella JA, Poynor EA, Soslow RA. Gastrointestinal adenocarcinoma arising in a mature cystic teratoma of the ovary. *Gynecol Oncol* 2004; 94:597-599.
- Berghella V, Ngadiman S, Rosenberg H. Malignant struma ovarii—a case report and review of literature. *Gynaecol Obstet Invest* 1997; 43:68-72.
- Dane C, Ekmez M, Karaca A, Ak A, Dane B. Follicular variant of papillary thyroid carcinoma arising from a dermoid cyst: a rare malignancy in young women and review of the literature. *Taiwan J Obstet Gynecol* 2012; 51:421-5.
- Rim SY, Kim SM, Choi HS. Malignant transformation of ovarian mature cystic teratoma. *Int J Gynecol Cancer* 2006; 16:140-144.
- Kurman R, Telinde R. *Blaustein's pathology of the female genital tract*. 5th ed. New York: Springer Verlag; 2002.
- Chang SD, Yen CF, Lo LM, Lee CL, Liang CC. Surgical intervention for maternal ovarian torsion in pregnancy. *Taiwan J Obstet Gynecol* 2011; 50:458-462.
- Hackethal A, Brueggmann D, Bohlmann MK, Franke FE, Tinneberg HR, Münstedt K. Squamous-cell carcinoma in mature cystic teratoma of the ovary: systematic review and analysis of published data. *Lancet Oncol* 2008; 9:1173-1180.