



TUMORES PRESACROS
REPORTE DE SERIE DE CASOS HOSPITAL MILITAR CENTRAL

AUTORES:

NICOLAS BETANCUR GARCIA

JUAN MANUEL TRONCOSO

CARLOS EDMUNDO MARTINEZ

Trabajo de grado para optar al título de Especialista en Cirugía General

**UNIVERSIDAD MILITAR NUEVA GRANADA-UNIVERSIDAD DEL
ROSARIO-HOSPITAL MILITAR CENTRAL**

FACULTAD DE MEDICINA

ESPECIALIZACIÓN EN CIRUGIA GENERAL-COLOPROCTOLOGIA

BOGOTA, 2013

TUMORES PRESACROS
REPORTE DE SERIE DE CASOS HOSPITAL MILITAR CENTRAL

AUTORES:

NICOLAS BETANCUR GARCIA

JUAN MANUEL TRONCOSO

ASESOR TEMÁTICO:

DR CARLOS EDMUNDO MARTINEZ

ASESOR METODOLÓGICO:

DR HENRY OLIVEROS

**UNIVERSIDAD MILITAR NUEVA GRANAD-UNIVERSIDAD DEL
ROSARIO-HOSPITAL MILITAR CENTRAL**

FACULTAD DE MEDICINA

ESPECIALIZACIÓN EN CIRUGIA GENERAL-COLOPROCTOLOGIA

BOGOTA, 2013

AGRADECIMIENTOS

Agradecemos al Hospital Militar Central y a la Universidad del Rosario por su interés y apoyo a la investigación en educación médico-quirúrgica, así como al Dr. Carlos Martínez Coordinador del único programa existente en Colombia de Colo-proctología en la Universidad Militar Nueva Granada por su permanente apoyo en la formación en cirugía Colo-rectal tanto para especialistas en entrenamiento así como residentes de la Universidad del Rosario, quien sin su apoyo no hubiese sido posible el desarrollo de este proyecto.

TABLA DE CONTENIDO

1. INTRODUCCIÓN -----	7
2. PLANTEAMIENTO DEL PROBLEMA -----	8
3. PREGUNTA DE INVESTIGACIÓN -----	9
4. JUSTIFICACIÓN -----	10
5. MARCO TEÓRICO -----	11
5.1 TUMORES CONGÉNITOS -----	12
5.2 QUISTES DEL DESARROLLO -----	13
5.3 DUPLICACIÓN QUÍSTICA -----	13
5.4 MENINGOCELE ANTERIOR -----	14
5.5 CORDOMA -----	14
5.6 TUMORES ADRENALES -----	14
5.7 TUMORES NEUROGÉNICOS -----	14
5.8 TUMORES ÓSEOS -----	15
5.9 LESIONES INFLAMATORIAS -----	15
5.10 MISCELÁNEA -----	15
6. OBJETIVOS -----	19
7. ASPECTOS METODOLÓGICOS -----	20
8. MATERIALES Y MÉTODOS -----	21
9. ASPECTOS ÉTICOS -----	22
10. VARIABLES -----	23
11. RESULTADOS -----	24
12. DISCUSIÓN -----	27
13. CONCLUSIONES -----	29
14. RECOMENDACIONES -----	30
15. BIBLIOGRAFÍA -----	31

RESUMEN

Introducción: Los tumores presacros son un raro y diverso grupo de lesiones que se originan en el espacio presacro, infrecuente y de difícil diagnóstico. El objetivo de este trabajo es describir una serie de casos con respecto a las características clínicas, diagnóstico y manejo. **Metodología:** Recolección de pacientes quienes fueron diagnosticados con tumores presacros desde el año 1988 a 2013. Revisamos la clínica, tiempo de evolución, métodos diagnósticos, el abordaje quirúrgico, patología y complicaciones. **Resultados:** Nueve pacientes fueron incluidos en este trabajo. 7 de los 9 pacientes presentaron como síntoma principal el dolor. El tiempo de evolución medio fue de 9.8 meses. Diagnóstico fue realizado con tacto rectal en todos los pacientes y confirmado con tomografía axial pélvica 9 pacientes y resonancia magnética nuclear pélvica en 5 pacientes. La patología: teratoma quístico maduro (n = 3), cordoma (no: 1), quiste epidermoide (no=1), fibrohistiocitoma de bajo grado (no =1), fibromatosis (no =1), angiomixoma agresivo (no =1). El abordaje quirúrgico principal fue la vía posterior de (Kraske) en 6 pacientes y en 2 por laparotomía. 1 paciente no se llevó a cirugía. La resección completa se obtuvo en un 87%. No se presentaron complicaciones tempranas postoperatorias. Complicaciones tardías en 1 caso (12%) por obstrucción intestinal. Se presentó 1 caso de recurrencia por resección parcial tumoral. **Conclusión:** Los tumores presacros son una patología infrecuente a nivel mundial, siendo un reto para el cirujano su diagnóstico y manejo.

PALABRAS CLAVES: Tumores presacros, tumores retrorectales, espacio retrorectal, teratoma, cordoma.

Background: Presacral tumors are a rare and diverse group of lesions that originate in the presacral space. Given its rarity, it is difficult to reach an early diagnosis of tumors presenting as difficult to manage. The aim of this paper is to describe a series of cases with respect to clinical features, diagnosis and management. **Methodology:** Collection of patients who were diagnosed with presacral tumors since 1988-2013. We reviewed the clinical, evolution, diagnosis, surgical approach, pathology and complications. **Results:** Nine patients were included in this study. 7 of the 9 patients had primary symptom is pain. The average evolution time was 9.8 months. Diagnosis was made with digital rectal examination in all patients and confirmed in 9 patients pelvic CT and pelvic MRI in 5 patients. Pathology: mature cystic teratoma (n = 3), chordoma (no: 1), epidermoid cyst (no = 1), low-grade fibrous histiocytoma (no = 1), fibromatosis (no = 1), aggressive angiomyxoma (no = 1). The main surgical approach was the posterior (Kraske) in 6 patients and in 2 by laparotomy. 1 patient had no surgery took. Complete resection was obtained in 87%. No early postoperative complications present. Late complications in 1 patient (12 %) for intestinal obstruction. Was only 1 case of partial resection tumor recurrence. **Conclusion:** Presacral tumors are an uncommon worldwide, being difficult to diagnosis and management.

KEY WORDS: presacral tumors, tumors retrorectales, retrorectal space, teratoma, chordoma.

1. INTRODUCCION

Tumores Presacros representan un grupo heterogéneo de lesiones predominantemente benignas y ocasionalmente lesiones neoplasias malignas. Los tumores presacros son poco comunes, presentando una incidencia de 1:40000 pacientes y se documentan en 0.014% en las colonoscopias¹, no mostrando predilección por genero.

En un estudio con 20,851 colonoscopias se encontraron solo 3 quites presacros en un año². Sin embargo la real prevalencia de estas lesiones es desconocida dado que muchos de estos tumores permanecen silentes³.

Dada su rareza, en la literatura mundial se enfocan fundamentalmente en su clasificación histológica y abordaje quirúrgico³.

La región presacra es un espacio rodeada en su parte posterior por la fascia presacra, anterior se encuentra la cara posterior del recto, inferior el musculo elevador del ano, la reflexión peritoneal pélvica en la parte superior y la pared lateral la constituye los uréteres y vasos iliacos.

En el espacio presacro se encuentra contenido tejido conectivo areolar, ramas del plexo sacro, la arteria sacra media, vasos iliolumbares y hemorroidales medios así como vasos linfáticos.

Los tumores Presacros pueden resultar de remanentes embriológicos (congénitos) o adquiridos. Dicho espacio contiene las tres capas germinales durante la embriogénesis, lo cual permite el desarrollo de una variedad de lesiones tumorales.

En el Ectodermo: Neuroectodermo-notocorda-Proctodeo, Mesodermo: Tejido conectivo y el Endodermo intestino posterior.

Jao y cols. Publicaron en 1985 una serie con 120 pacientes¹, 79 de ellos presentaron lesiones quísticas de origen congénito afectando en su mayoría al sexo femenino.

En general, son asintomáticos o presentan sintomatología inespecífica, haciendo que el diagnóstico y manejo de esta patología sea difícil y en ocasiones sea un hallazgo incidental en cirugía. La mayoría de estas lesiones son palpables al examen rectal. Una vez detecta, la evaluación radiológica, especialmente la resonancia magnética pélvica es de gran valor para el planeamiento quirúrgico. Muchos de estos tumores requieren resección quirúrgica (sin biopsia preoperatoria), aunque la biopsia puede ser considerada para lesiones no resecables o en pacientes que no toleren el procedimiento quirúrgico.

En el presente trabajo se reporta una serie de casos de tumores presacros, enfocando su método diagnóstico, patología, manejo quirúrgico, y complicaciones.

2. PLANTEAMIENTO DEL PROBLEMA

Los Tumores Presacros son una patología infrecuente, heterogénea y de difícil manejo con pocos reportes de casos en la literatura colombiana. Hacia 1985 se reportó la serie de casos más grande en el mundo publicada en la clínica mayo con un total de 120 casos, posteriormente se han realizado reporte de casos aislados de tumores presacros. Dada su infrecuencia hay poco en la literatura mundial con respecto a su diagnóstico y manejo terapéutico. En la literatura colombiana en la revisión de la literatura no hay ningún artículo donde se haya reportado una serie de casos con esta patología. En esta oportunidad se da a conocer 9 casos presentados en el Hospital Militar Central dando a conocer sus características clínicas, diagnóstico y manejo en este tipo de tumores.

3. PREGUNTA DE INVESTIGACION

Cuál es el comportamiento general de los tumores presacros siendo este tipo de tumor una patología infrecuente en la población general?

4. JUSTIFICACION

Dada la infrecuencia de los tumores presacros en la población colombiana se considera importante realizar la descripción de una serie de casos que se presenta en la unidad de coloproctología del Hospital Militar Central con el objetivo de describir su grupo etario, características clínicas, principales métodos de diagnóstico y abordaje terapéutico y así dar a conocer en nuestro medio las herramientas principales con que se cuentan para el manejo de este tipo de lesiones.

5. MARCO TEORICO

Tumores Presacros representan un grupo heterogéneo de lesiones predominantemente benignas y ocasionalmente lesiones neoplasias malignas. Los tumores presacros son poco comunes, presentando una incidencia de 1:40000 pacientes y se documentan en 0.014% en las colonoscopias¹, no mostrando predilección por genero. Se estima que por año son diagnosticados en promedio 2 casos en un área metropolitana mayor⁴.

Aunque la mayoría de tumores presacros están reportados en la literatura como reporte de casos, la serie de casos más grande en el mundo publicada fue en la clínica mayo en 1985 con un total de 120 casos¹.

El primer informe de lo que ahora llamamos teratoma sacrococcígeo fue gracias a Peu, obstetra francés del siglo 17⁵. El término teratoma sacro fue sugerido por Virchow en 1869⁶. Posteriormente en 1885, Middelporf⁷ publicó su informe de un tumor extirpado por Kraske del espacio sacro a una niña de 1 año de edad, y es por eso que muchos autores posteriormente denominaban a los teratomas en el espacio retrorectal como “tumores de Middeldorpf⁸. En 1885, Barnes⁹ reportó sobre un gran quiste dermoide presacro encontrado en la autopsia de una mujer joven que murió a causa de la obstrucción en el trabajo de parto por el quiste. En 1891, Page¹⁰ resecó un gran quiste dermoide presacro de 29,5 por 17,5 cms. a través de una incisión transversal entre el ano y el cóccix. El primer cordoma sacrococoxigeo fue reportado por Hennig en 1900⁵.

El espacio retrorectal también es conocido como espacio presacro. Este espacio presenta en su cara anterior por la fascia propia del recto, posteriormente por la fascia presacra que recubre el sacro. Lateralmente se encuentra los ligamentos laterales del recto, los uréteres y los vasos ilíacos. El espacio retrorectal se extiende superiormente a la reflexión peritoneal del recto y en su parte inferior por la fascia de waldeyer la cual se encuentra a 3-5 cms. a la unión ano rectal⁴.

El espacio retrorectal es un área de desarrollo de múltiples estructuras embriológicas. Múltiples estructuras involucionan y se desarrollan en estrecha proximidad con el extremo distal del embrión, y como resultado de ello, este espacio puede albergar un grupo heterogéneo, de tumores benignos como malignos procedentes de los remanentes embriológicos de estos tejidos⁴.

Varias teorías se han propuesto para explicar el origen de los tumores quísticos epidérmicos presacros¹¹, pero en general parece ser que estas lesiones son el resultado de un desarrollo defectuoso de las estructuras vecinas durante la embriogénesis. El sexo femenino y la edad de 40-60 años se han identificado como factores de riesgo para el desarrollo de los tumores en el espacio retrorectal, sin estar otra condición clínica presente que pueda establecerse como factor de riesgo para el desarrollo de este tipo de tumores.

La heterogeneidad de las lesiones primarias que ocurren en el espacio presacro refleja el número de remanentes y cierres embriológicos y diferentes tipos de tejidos dentro de este espacio.

Los tumores retrorectales pueden ser clasificados en congénitos o adquiridos, y como tumores benignos y malignos. Además, pueden ser divididos en lesiones sólidas, tales como los teratomas, cordomas, schwannomas o ependimomas, o como lesiones quísticas, como quistes o quistes dermoides¹² **(Ver tabla 1)**.

TABLA 1. Clasificación tumores presacos¹³.

Congénitos	Neurogénicos	Óseo	Inflamatorio	Misceláneo
Quiste epidermoide	Neurofibroma	Osteoma	Granuloma	Enfermedad metastasica
Quiste dermoide	Neuroleiomioma	Sarcoma osteogénico	Absceso perineal	Linfangioma
Teratoma	Ependimoma	Quiste óseo sacro	Absceso pelvirectal	Tumor desmoide
Cordoma	Ganglioneuroma	Tumor de Ewing	Fistula	Angiomixoma
Meningocele anterior	neurofibrosarcoma	Tumor de células gigantes	Granuloma coriónico	Fibrosarcoma
Duplicación rectal		Condromixo sarcoma		Endotelioma
Restos de tumores glándula suprarrenal				Fibrohistiocitoma

Los tumores más frecuentes son de origen congénito y representan 2/3 de todos los casos, y los tumores benignos llegan a ser más el 66% de estos, siendo más frecuentemente afectado el sexo femenino^{14, 1, 15, 16, 17, 18, 19, 20} **(Ver tabla 2)**.

5.1 TUMORES CONGENTOS

Las lesiones congénitas comprenden aproximadamente el 55 a 70% de todos los tumores retrorectales. Estos tumores están presentes en el nacimiento y se cree que surgen a partir de remanentes embrionarios e incluyen lesiones quísticas (quistes del desarrollo, duplicación quística, meningocele anterior) y lesiones solidas (teratomas, cordomas y restos de tumores adrenales)^{1,4,13}.

5.2 QUISTES DEL DESARROLLO

Quistes del desarrollo cuentan aproximadamente con el 60% de todos los tumores congénitos a nivel rectoanal y se puede surgir de cualquier hoja embrionaria. Son diagnosticados generalmente en la 4ta-5ta década de la vida, presentándose más comúnmente en el sexo femenino, con una relación sexo masculino/femenino de 1:2 a 1:15¹. Dependiendo del remanente embrionario los quistes del desarrollo pueden ser epidermoide, dermoide, hamartoma o teratomas^{14,21}. De manera infrecuente se puede presentar la triada hereditaria de Currano: Malformación ano-rectal, defectos del hueso sacro y tumor presacro²².

La categorización de los quistes del desarrollo depende del tipo de epitelio que los rodea. Los quistes epidermoides y dermoides son lesiones benignas que surgen del ectodermo, rodeados por un epitelio escamoso, el quiste dermoide se encuentra rodeado de un epitelio escamoso y elementos los cuales contienen apéndices cutáneos como pelos o glándulas sudoríparas. Hamartoma son mucho menos comunes siendo rodeado por epitelio columnar o transicional.

Aproximadamente el 50% de estas lesiones son asintomáticas, diagnosticándose usualmente durante un tacto rectal, presentándose como una masa de consistencia suave, bien definida, posterior al recto y usualmente en la línea media²¹. Estas lesiones tienen un alto riesgo de infección (30%) y pueden ser fácilmente mal diagnosticadas como absceso supraelevador, quiste pilonidal infectado o fistula perianal. La recurrencia posterior al manejo quirúrgico sugiere la presencia de un quiste congénito^{13,21}.

Finalmente los teratomas provienen de células toti-potenciales que surgen de cualquier hoja germinal y que tienen cuando están presentes potencial maligno en un 5 a 10% cuando la lesión no recibe ningún tipo de tratamiento^{1,4,21}. Tienen una incidencia de 1 en 30000 a 1 en 43000 nacimientos. Dependiendo del grado de diferenciación los teratomas pueden ser clasificados como maduros, inmaduros o malignos. Los maduros contienen epitelial y conjuntivo maduro. Los teratomas inmaduros presentan áreas de endodermo, mesodermo o ectodermo primitivo con elementos maduros²¹. Pueden ser sólidos o quísticos y puede contener diferentes tipos de tejidos, incluyendo tejido respiratorio, nervioso o epitelio gastrointestinal. Tienden adherirse al cóccix; sin embargo en ausencia de degeneración maligna, raramente se adhiere al recto u otra víscera adyacente⁴. A diferencia con la población pediátrica, la mayoría de teratomas en adultos son benignos y no son visibles externamente. El dolor y el drenaje perianal son síntomas comunes, particularmente en estadios avanzados. Un examen físico con periodicidad e imágenes diagnósticas como TC o RMN de la región perianal y pélvica son necesarios para realizar el seguimiento posterior a la resección quirúrgica^{1,21}.

5.3 DUPLICACION QUISTICA

Los Quistes enterógenos surgen del intestino primitivo. El secuestro del intestino posterior durante la embriogénesis da como resultado quistes de pared delgada, multiloculares,

revestidos por epitelio columnar. La mayoría de estas lesiones son benignas, aunque la degeneración maligna ha sido reportada¹³.

5.4 MENINGOCELE ANTERIOR

Constituye el tercer grupo de lesiones retrorectales congénitas. El meningocele anterior y el mielomeningocele es una hernia a través de un defecto anterior del sacro. El saco herniario se encuentra en continuidad con el espacio subdural y es por esto que contiene líquido cerebroespinal. El defecto del sacro resulta en un signo radiológico patognomónico “signo de la cimitarra”. Los síntomas que se presentan son cefalea relacionada con la defecación. El meningocele anterior se puede presentar con síntomas compresivos como constipación, síntomas urinarios o dolor lumbar. La aspiración con aguja del meningocele anterior esta estrictamente prohibida ya que constituye un riesgo para desarrollar meningitis^{4,13,21}.

5.5 CORDOMA

Son la lesión maligna de bajo grado más común del espacio retrorectal. Los cordomas surgen de los vestigios de la notocorda fetal, conectados generalmente desde el interior del cuerpo vertebral. Algunos autores consideran que este tumor es de origen óseo pero dado que su origen es la notocorda fetal, sigue siendo clasificado como de origen congénito. Aunque este tumor pueden presentar en cualquier sitio de la columna vertebral, 1/3 de estos se producen en el espacio retrorectal. A diferencia de los quistes del desarrollo, son mucho más comunes en el sexo masculino, con una relación estimada de 2:1. Los síntomas que se derivan de este tipo de tumor pueden ser dolor y síntomas relacionados a la compresión nerviosa como la incontinencia o impotencia sexual. Generalmente son tumores de consistencia lobulados, firmes, crecimiento lento que invade y destruye estructuras óseas. La resección radical previene la recurrencia y es el mejor tratamiento para este tipo de tumor, sin embargo presenta tasas de recurrencia local hasta del 44%, y una supervivencia a 10 años del 9% al 35%^{1,4,13}.

5.6 TUMORES ADRENALES ECTOPICOS

Son extremadamente raros a nivel retrorectal, aunque son de naturaleza congénita a menudo son clasificados como misceláneos. Su tratamiento es como cualquier otro feocromocitoma ectópico^{4,13}.

5.7 TUMORES DE ORIGEN NEUROGÉNICO

Los tumores de origen neurogénicos cuentan aproximadamente en el 10% en el espacio retrorectal. Estos tumores incluyen neurofibromas y sarcomas, neurilemomas, endimomas, schwannomas y ganglioneuromas. El tumor más común es el Schwannoma. Los síntomas más comunes son el dolor y disfunción neurológica. Las características histológicas típicas incluyen una capsula de epineuro, haces fasciculares de células fusiformes y evidencia de elementos de degeneración como la formación de quistes, hemorragia, fibrosis y calcificación.

Abernathey et al²³. En 1986 publicó la serie más grande de Schwannomas presacros en 13 pacientes mayores de 33 años, sin predilección por sexo, una edad media al momento del diagnóstico de 38,6 y un lapso de tiempo entre los primeros síntomas y el diagnóstico de 5.2 años.

Schwannomas generalmente no exceden un diámetro de 5 a 6 cms. Los tumores menos frecuentes son neurofibromas, ependimomas, ganglioneuromas y neurofibrosarcomas. Dos tercios de estos tumores son benignos y la resección quirúrgica suele ser curativa^{1,4,13,23}.

5.8 TUMORES ÓSEOS

Las lesiones óseas representan alrededor del 10 % de las lesiones retrorectales e incluyen osteomas, quistes óseos y tumores como el sarcoma osteogénico, tumor de Ewing, condromixosarcoma, y los tumores de células gigantes¹³. Las lesiones óseas generalmente son benignas y predominan en la población pediátrica.

Sarcomas de Ewing y osteosarcomas son tumores malignos derivados del tejido óseo que pueden surgir en el espacio presacro. El tumor de Ewing es un tumor maligno primario que puede contener hueso, elementos cartilagosos y fibrosos. La lesión se caracteriza por la destrucción de hueso circundante y se asocia con dolor. La escisión quirúrgica, en combinación con quimioterapia adyuvante, se requiere a menudo²¹.

5.9 LESIONES INFLAMATORIAS

Las lesiones inflamatorias son menos comunes que las lesiones congénitas. Pueden ser sólidas o quísticas (absceso). Usualmente representan extensión de un cuadro infeccioso tanto del espacio peri-rectal o de un cuadro infeccioso intra-abdominal como son la diverticulitis o enfermedad de Crohn. Las lesiones inflamatorias pueden ser Granulomas por cuerpo extraño, los cuales son reportados como fugas por bario o material de sutura de cirugías previas. Finalmente, condiciones inflamatorias poco comunes como tuberculosis o enfermedad granulomatosa han sido reportadas en el espacio retrorectal^{4,13}.

5.10 MISCELÁNEO

Las lesiones misceláneas en el espacio presacro incluyen una amplia variedad de masas tanto benignas como malignas (**Ver tabla 1**). El tratamiento y pronóstico usualmente están relacionados a la historia natural de la enfermedad de base¹³.

Los síntomas en los tumores retrorectales son a menudo inespecíficos y están en relación con la localización y el tamaño de la lesión. La mayoría de las lesiones quísticas son asintomáticas y son diagnosticadas en un examen rectal de rutina¹³. El dolor es el síntoma más común y generalmente indica mal pronóstico y lesiones malignas^{3,14}.

Otros síntomas reportado por algunas personas como plenitud rectal o dolor (empeoramiento en posición de sentado o con la deambulaci3n), alteraci3n del habito intestinal, alteraci3n en la diuresis, distocias tienden a ser t3picos en tumores avanzados en los cuales se produce compresi3n de estructuras adyacentes^{14, 24, 25}.

El diagn3stico de los tumores retrorectales requiere un alto 3ndice de sospecha, ya que estos pacientes se presentan como ya se mencion3 con s3ntomas muy inespec3ficos. La evaluaci3n diagn3stica inicia con una adecuada anamnesis por parte del cirujano tratante as3 como de un examen f3sico completo, haciendo 3nfasis en un examen rectal minucioso. En el 97% a 100% de los pacientes el examen rectal digital tiende a revelar una suave masa posterior indolora localizada a nivel retrorectal pudi3ndose describir la localizaci3n, tama3o y la extensi3n proximal del tumor para realizar un adecuado planeamiento quir3rgico^{1,13,16}. Los ex3menes imagenol3gicos son muy 3tiles en el diagn3stico y manejo preoperatorio de esta patolog3a incluyendo la ultrasonograf3a (abdominal y transrectal), TAC, RMN, colonoscopia, colon por enema, arteriograf3a y radiograf3as simple de abdomen.^{13,16,4}. La colonoscopia es 3til para detectar lesiones que ocupan el lumen rectal.

TABLA 2. Proporci3n de la Incidencia masculina a la incidencia total de los quistes del desarrollo: una revisi3n de la serie de casos en la literatura actual

Serie de casos	Masculino/femenino	Tipo de quiste	No. de casos	M	F
Whitaker and Pemberton ¹⁴	0:10	Dermoide	9	0	9
Jao et al ¹	3:49	Epidermoide	15	0	15
		Hamartoma qu3stico	16	2	14
		Teratoma	15	1	14
		Teratocarcinoma	3	0	3
Uhlig and Johnson ¹⁵	4:26	Hamartoma qu3stico	16	1	15
		Epidermoide	1	NE	NE
		Teratoma	2	NE	NE
		Teratocarcinoma	2	0	2
		Indeterminado	7	NE	NE
Pidala et al ¹⁶	2:14	Dermoide	NE	NE	NE
		Epidermoide	NE	NE	NE
		Hamartoma qu3stico	NE	NE	NE
		Teratoma	NE	NE	NE
Melody ¹⁷	0:3	Epidermoide	3	0	3
Kurosaki et al ¹⁸	1:2	Epidermoide	1	0	1
		Lipoma/dermoide	1	1	0
Yang et al ¹⁹	0:4	Epidermoide	4	0	4
Gerwig and Walter ²⁰	0:5	Tumor qu3stico presacro	5	0	5

NE, no se especifica en la literatura.

Tanto el TAC como la RMN ofrecen la mejor evaluación para este tipo de tumores son una sensibilidad y especificidad superiores al 90%. Las características que deben ser informadas fundamentalmente son 4²⁶:

1. Ubicación del tumor, la vértebra sacra más craneal en línea con la parte superior del tumor.
2. Tamaño del tumor (los dos mayores dimensiones).
3. Morfología y consistencia del tumor.
4. Interface tumoral, ya sea clara, contiguo, erosión o invasión al sacro o de otros órganos, o extensión fuera de la pelvis (**Ver Tabla 3**).

TABLA 3. Características radiológicas que sugieren el comportamiento del tumor basados en la apariencia en la RMN.

Característica	Característica benigna	Característica maligna
Naturaleza tumoral	Quístico	Sólido
Intensidad de la señal	Homogéneo	Heterogéneo
Margen	Bordes lisos, encapsulada, bien delimitada	Irregular, infiltrativo
Realce	Poco realce (excepto tumores neurogénicos).	Variable
Tamaño	Estable	Crecimiento rápido

El diagnóstico diferencial entre un quiste retrorectal infectado y un absceso perineal con componente retrorectal puede constituir un reto para el cirujano. Cinco condiciones pueden indicar un quiste retrorectal: 1) Absceso recurrente en el espacio retrorectal, 2) Reoperaciones por una “fistula anal,” 3) Incapacidad para hallar la fuente de infección primaria usual a nivel de la cripta en la línea dentada cuando el trayecto anal, perianal o rectal esta presente, 4) La presencia de un orificio post-anal, 5) Presenta algún grado de fijación a nivel presacro¹.

La biopsia preoperatoria ha sido un tema en debate en la literatura.^{27,3} Se consideran dos indicaciones para realizar biopsia preoperatoria: 1. Lesiones avanzadas inoperables o enfermedad metastasica con el objetivo de determinar tratamiento adyuvante; 2. Una sospecha alta de que el tumor es una metástasis o un linfoma. En los casos que se haya tomado biopsia y posteriormente se vaya a realizar resección quirúrgica, el trayecto donde se tomo la biopsia también debe ser resecado debido a la posibilidad de implantación tumoral. La biopsia se debe realizar guiada por TC o ecografía y debería ser realizada transperineal o para-sacra. Riojas CM. et al.¹⁹ recomienda la escisión completa para obtener el diagnóstico histológico de la lesión.

Una vez el tumor retrorectal a sido diagnosticado, debe ser extirpado, dado que la lesión puede ser maligna en el momento del diagnóstico o porque puede tener riesgo de degeneración,

especialmente en los teratomas, lesiones quísticas, meningoceles que pueden infectarse o producir distocias en mujeres jóvenes¹² y debe ser tratado incluso en casos asintomáticos^{5,9,28}.

Los 4 abordajes principales para la resección de tumores presacros son los siguientes: Abordaje posterior con o sin resección de coxis, abordaje transabdominal, abordaje combinado posterior/transabdominal y el abordaje transrectal.

El pronóstico depende del tipo de tumor y la resección completa. Los tumores benignos la supervivencia es del 100% y la recurrencia es rara. Los tumores malignos tienen un pronóstico pobre, el control local de la enfermedad es difícil, especialmente en los cordomas.^{13,27} La recurrencia local en los cordomas es común, y se ha reportado una supervivencia alta a largo plazo pero variable, en un rango del 43-75% a 5 años, y de 9 a 35% a 10 años¹³.

En el siguiente reporte se dará a conocer el primer trabajo de tumores en el espacio retrorectal publicado en la literatura colombiana.

6. OBJETIVOS

OBJETIVO GENERAL

Hacer una descripción general de las características clínicas, abordaje diagnóstico y terapéutico de los tumores presacros identificados entre el año 1988 a 2013 en el servicio de colo-proctología del HMC.

OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- Realizar descripción de las características demográficas teniendo en cuenta variables como edad, género y cuadro clínico.
- Descripción de los diferentes métodos diagnósticos, incluyendo tacto rectal.
- Describir las características técnicas del abordaje quirúrgico utilizado.
- Descripción de complicaciones tempranas y tardías en el postoperatorio.
- Comparar los resultados de tumores presacros en el Hospital Militar Central con la experiencia reportada en la literatura mundial.

7. ASPECTOS METODOLOGICOS

Tipo de estudio

Estudio observacional descriptivo simple (reporte de serie de casos), con una recolección retrospectiva de un grupo de 9 pacientes con tumores en el espacio retrorectal entre 1989 y 2013.

Población de referencia

Pacientes quienes presentaron tumores presacros en el Hospital Militar Central de Bogotá.

Población de estudio

Pacientes quienes presentaron tumores presacros entre 1989 y 2013 en el Hospital Militar Central de Bogotá.

Tamaño de la muestra

Se realizo una recolección retrospectiva de un grupo de 9 pacientes con tumores en el espacio retrorectal.

Selección de los sujetos a estudio

Criterios de inclusión:

Pacientes con tumores presacros en el periodo comprendido entre 1989 y 2013 que hayan o no recibido manejo quirúrgico.

Criterios de exclusión:

Pacientes con patología diferente a tumores presacros.

Control de Sesgos de Información

Los sesgos se controlaron estableciendo los pacientes diagnosticados con tumores presacros, sin alteración de cada uno de los registros obtenidos de la historia clínica y con conceptos precisos de las clasificaciones que presentan los tumores presacros.

8. MATERIALES Y METODOS

Se realizó un estudio observacional descriptivo simple (reporte de serie de casos), con una recolección retrospectiva de un grupo de 9 pacientes con tumores en el espacio retrorectal entre 1989 y 2013. Las variables estudiadas fueron: Edad, género, quirúrgico síntomas (asintomático-dolor-déficit neurológico-otro), método diagnóstico (examen físico, TAC abdomino-pélvico, RMN de pelvis, colonoscopia), tipo y tamaño de tumor en patología y en métodos diagnósticos, procedimiento quirúrgico y complicaciones.

9. ASPECTOS ETICOS

Manejo de confidencialidad por parte de los autores, ya que la citación de los casos se hace a través de numeración, evitando así, nombres e identificación.

Teniendo en cuenta la Resolución 8430 de 1993 del Ministerio de Salud. Por la cual se establecen las normas científicas, técnicas y administrativas para la investigación en salud. Según el artículo 11 esta investigación se clasifica como:

- **Investigación sin riesgo:** Son estudios que emplean técnicas y métodos de investigación documental retrospectivos y aquellos en los que no se realiza ninguna intervención o modificación intencionada de las variables biológicas, fisiológicas, psicológicas o sociales de los individuos que participan en el estudio, entre los que se consideran: revisión de historias clínicas, entrevistas, cuestionarios y otros en los que no se le identifique ni se traten aspectos sensitivos de su conducta.

Dicho protocolo fue aprobado por el Comité de Ética del Hospital Militar Central de Bogotá **(Anexo 1)**.

Plan de análisis estadístico: Dado el tamaño de la muestra, solo se da la estimación de frecuencias en cada una de las variables estudiadas.

10. VARIABLES

EDAD	GENERO	SINTOMAS	METODO DIAGNOSTICO	TAMAÑO DE TUMOR	PATOLOGIA	PROCEDIMIENTO QUIRURGICO	RECURRENCIA	COMPLICACIONES
51	M	Dolor sacro-coxígeo	TC	45 mm	Cordoma	Kraske	Si	Si*
54	M	Dolor pélvico	TC	15 mm	Fibrohistiocitoma de bajo grado	Laparotomía	No	No
25	F	Dolor anal	TC, RMN	25 mm		No se opero**	No se opero	No se opero
48	F	Dolor miembro inferior izquierdo	TC, RMN	120 mm	Fibromatosis	Laparotomía	No	No
37	F	Hematoquezia	TC	80 mm	Teratoma quístico maduro	Kraske	No	No
60	M	Sensación de masa	TC, RMN	20 mm	Angiomixoma maligno	Kraske	No	No
65	F	Dolor sacro-coxígeo	TC	60 mm	Quiste epidermoide	Kraske	No	No
36	F	Dolor anal	TC, RMN	25 mm	Teratoma quístico maduro	Kraske	No	No
43	F	Dolor lumbar	TC, RMN	20 mm	Teratoma quístico maduro	Kraske	No	No

TC: Tomografía axial computarizada, RMN: Resonancia Magnética Nuclear. * Obstrucción Intestinal por resección parcial. ** No aceptó procedimiento

11. RESULTADOS

Se estudiaron un total de 9 pacientes (6 mujeres y 3 hombres) con una mediana de edad de 46 (25-65) años. Un total de 9 pacientes fueron atendidos en el Hospital Militar Central de Bogotá. El síntoma más común en los pacientes fue dolor 7/9 de los casos presentándose como dolor perianal en 2 casos, dolor sacro coxígeo en 3 casos, dolor en miembro inferior izquierdo en 1 caso y dolor pélvico en 1 caso. Otros síntomas que se presentaron fue sensación de masa en 1/9 caso y hematoquezia en 1 caso. El tiempo de evolución medio fue de 9.8 (5-24) meses. Todos los tumores fueron detectados al examen rectal. En 6 pacientes el tamaño medio tumoral fue de 39.1 (30-80 mm). En 3 no hubo descripción del tamaño tumoral. La localización más frecuente fue la retrorectal en 7 (77%) de los casos, 1 caso fue pararectal izquierda y en 1 caso no se reporto. La consistencia al tacto rectal fue quística en 6/9 casos y solida en 3 casos. La evaluación preoperatoria se realizó con colonoscopia, Tomografía axial computarizada (TC) y con Resonancia magnética nuclear (RMN). Se realizo colonoscopia en 5/9 casos, reportadas como normales. A todos los casos se realizo TC, con un tamaño medio de 45 (20-120) mm. La localización en 8 casos fue retrorectal y en 1 caso fue pararectal izquierda. La consistencia reportada fue quística en 5/9 casos y solida en 4/9 casos. Se realizo RMN a 5/9 casos. El tamaño medio fue de 66 (35-120) mm. La localización retrorectal se reportó en 3/9 casos y 2/9 casos pararectal izquierda. La consistencia reportada fue quística en 3 casos y en 2 casos fue solida. El abordaje quirúrgico en 6/9 fue tipo kraske, 2 casos laparotomía mediana y 1 caso no se opero. (La paciente no autorizo el procedimiento quirúrgico). La resección completa fue llevada en 7/8 casos, resección parcial en 1 caso por compromiso de S1-S2. Tamaño medio posterior a la resección fue de 65 (20-150) mm. El tipo histológico más frecuente fue teratoma quístico maduro en 3 de los casos. El resto de casos se distribuyen así: 1 caso cordoma sacro, 1 quiste epidermoide, 1 hemangiomixoma agresivo, 1 caso fibrohistiocitoma de bajo grado y 1 caso de fibromatosis (ver tabla 4). Las complicaciones tempranas definidas en el primer mes posterior al tratamiento quirúrgico no se presento en ninguno de los casos. Las complicaciones tardías se presento en 1 caso con un cuadro de obstrucción intestinal por crecimiento tumoral.

Tabla 4: Distribución de la población de estudio según anatomía patológica.

ANATOMÍA PATOLÓGICA	Nº (%)
Teratoma quístico maduro	3 (37,5)
Cordoma sacro	1 (12,5)
Quiste epidermoide	1 (12,5)
Hemangiomixoma agresivo	1 (12,5)
Fibrohistiocitoma de bajo grado	1 (12,5)
fibromatosis	1 (12,5)

Tabla 5: Características de la población de estudio.

No.	Edad	Genero	Año de cirugía	Tiempo de evolución	Primer síntoma	TC	RMN	Procedimiento	Anatomía patológica
1	51	M	1988	6 meses	Dolor sacro-coxígeo	Si	No	Kraske	Cordoma
2	54	M	1995	4 meses	Dolor pélvico	Si	No	Laparotomía	Fibrohistiocitoma de bajo grado
3	25	F	1998	6 meses	Dolor anal	Si	Si	No se opero	
4	48	F	2002	8 meses	Dolor miembro inferior izquierdo.	Si	Si	Laparotomía	Fibromatosis
5	37	F	2006	10 meses	Hematoquezia	Si	No	Kraske	Teratoma quístico maduro
6	60	M	2010	24 meses	Sensación de masa	Si	Si	Kraske	Angiomixoma maligno
7	65	F	2010	12 meses	Dolor sacro coxígeo	Si	No	Kraske	Quiste epidermoide
8	36	F	2011	6 meses	Dolor anal	Si	Si	Kraske	Teratoma quístico maduro
9	43	F	2013	5 meses	Dolor lumbar	Si	Si	Kraske	Teratoma quístico maduro

TC: Tomografía axial computarizada, RMN: Resonancia Magnética Nuclear

Tabla 6: Exámen físico de la población de estudio (Tacto rectal).

No.	Localización	Consistencia	Tamaño
1	Retrorectal	Quística	60 mm
2	Retrorectal	Quística	45 mm
3	Pararectal Izquierda	Solida	N
4	N	Quística	N
5	Retrorectal	Solida	No
6	Retrorectal	Quística	50 mm
7	Retrorectal	Quística	80 mm
8	Retrorectal	Quística	30 mm
9	Retrorectal	Solida	30 mm

N: No reportada

Tabla 7: Método diagnóstico en la población de estudio (TC)

No.	Localización	Consistencia	Tamaño
1	Pararectal izquierda	Solida	45 mm
2	Retrorectal	Quística	15 mm
3	Retrorectal	Quística	25 mm
4	Retrorectal	Solida	120 mm
5	Retrorectal	Quística	80 mm
6	Retrorectal	Quística	20 mm
7	Retrorectal	Quística	60 mm
8	Retrorectal	Solida	25 mm
9	Retrorectal	Solida	20 mm

TC: Tomografía computarizada

Tabla 8: Método diagnóstico en la población de estudio (RMN)

No.	Localización	Consistencia	Tamaño
1	NR	NR	NR
2	Retrorectal	Quística	35 mm
3	Pararectal Izquierda	Solida	100 mm
4	NR	NR	NR
5	Retrorectal	Solida	120 mm
6	Retrorectal	Quística	43 mm
7	NR	NR	NR
8	Pararectal Izquierda	Quística	35 mm
9	NR	NR	NR

RMN: Resonancia Magnética Nuclear NR: No Realizada

12. DISCUSION

Los tumores presacros son poco comunes, presentando tan solo en nuestra serie 9 pacientes con un rango de tiempo muy amplio en un solo hospital.

El 62.5% de las lesiones eran benignas siendo el teratoma el tumor benigno más común, mientras que el 37% de las lesiones eran malignas.

El sexo femenino es el género más frecuentemente afectado, no siendo diferente con respecto a la revisión de series de casos publicados en la literatura.^{1, 14, 15, 16, 17, 18, 19, 20} (Ver tabla 2). La edad de presentación presenta un amplio rango entre 25 y 65 años. Los síntomas en los tumores retrorectales son a menudo inespecíficos y están en relación con la localización y el tamaño de la lesión. La mayoría de las lesiones quísticas son asintomáticas y son diagnosticadas en un examen rectal de rutina¹³. El dolor es el síntoma más común y generalmente indica mal pronóstico y lesiones malignas^{12, 3}.

Todos los casos en nuestra serie presento algún tipo de síntoma, siendo el más común el dolor el dolor (pélvico, miembro inferior izquierdo, sacro coxígeo, anal) en un 77% de los casos, con un tiempo de evolución sintomático medio de 9 meses. Un caso se presento con sensación de masa y otro con hematoquezia. En 1 estudio de 14 pacientes, el 43% de pacientes fueron asintomáticos¹⁶. En otro estudio de 34 pacientes revelo que 56% fueron asintomáticos en comparación con el 14% de los pacientes con tumor maligno quienes fueron asintomáticos⁷.

Otros síntomas reportado por algunas personas como plenitud rectal o dolor (empeoramiento en posición de sentado o con la deambulacion), tales como alteración del habito intestinal, alteración en la diuresis, distocias tienden a ser típicos en tumores avanzados en los cuales se produce compresión de estructuras adyacentes^{12, 24, 25}.

El diagnóstico de los tumores retrorectales requiere un alto índice de sospecha, ya que estos pacientes se presentan como ya se menciona con síntomas muy inespecíficos. En nuestra serie todos los tumores fueron palpados con el examen rectal pudiendo describir su localización y la consistencia tumoral, siendo la localización retrorectal más frecuente en un 77% y 11% pararectal izquierda y la consistencia quística se presento en la mayoría de los casos en un 62%. Solo en un caso no se describe la localización tumoral.

En cuanto a los diagnósticos imagenológicos los cuales han demostrado ser una gran herramienta para el abordaje de este tipo de tumores, se les realizó a los pacientes TC abdomino-pélvico y solo a 5 casos se realizo RMN. En el TC se presentaron con un tamaño medio de 45 (20-120) mm. La localización en 8 casos fue retrorectal y en 1 caso fue pararectal izquierda. La consistencia reportada fue quística en 5/9 casos y solida en 4 casos. En la RMN el tamaño medio fue de 66 (35-120) mm. La localización retrorectal se reportó en 3/5 casos y 2 casos pararectal izquierda. La consistencia reportada fue quística en 3 casos y en 2 casos fue sólida.

Ludwing et al.²⁹ sugiere que el TC es la imagen de elección para el diagnóstico de tumores presacros. Es adecuado para determinar el tamaño tumoral y su relación espacial, identifica lesiones sólidas versus quísticas, quistes simples versus loculados.

En un estudio de 56 pacientes, 39 presentaron lesiones benignas y 17 lesiones malignas. La apariencia radiológica en lesiones benignas fueron quísticas en un 46%, mientras que en un 5.8% se presentaron como lesiones malignas. La apariencia sólida en lesiones benignas en este estudio correspondió a un 33% mientras que en lesiones malignas fue un 58%²⁶.

La biopsia preoperatoria no se realizó en ninguno de nuestros pacientes, sin embargo dado el debate que se presenta en la literatura^{27,3} se considera en nuestro servicio que una vez sea diagnosticada la patología tumoral debe ser extirpada por el riesgo de degeneración maligna especialmente en teratomas o desencadenar una infección.

Se debe realizar una adecuada selección del paciente para definir el abordaje quirúrgico ideal de los 4 que hay descritos fundamentalmente.

Para determinar el abordaje quirúrgico se debe conocer la localización exacta del tumor en el sacro y su tamaño. Los tumores que se encuentran en la línea media de S3 se deben realizar un abordaje posterior. Los tumores que se localizan superiores a esta línea media deben ser abordados por laparotomía, posiblemente combinado con un abordaje posterior^{27,28,29}. En nuestra serie se realizó un abordaje posterior tipo Kraske en 6 casos, se realizó laparotomía en 2 casos, lográndose una resección completa con el abordaje posterior en 7 casos, 1 caso se realizó resección parcial por compromiso de S1-S2. El tamaño medio intraoperatorio fue de 65 mm, siendo la RMN el examen que más se aproximó en cuanto al tamaño tumoral y definió el abordaje quirúrgico.

Como ya se describió el pronóstico depende del tipo de tumor y la resección completa siendo los cordomas los tumores que presentan difícil control local tanto con su manejo quirúrgico y radioterapia adyuvante^{13,27}. En nuestra serie se presentó recurrencia local por resección parcial en un paciente con un cordoma, requiriendo manejo con radioterapia adyuvante, con difícil control local de la enfermedad. En la clínica Mayo, la supervivencia para cordomas totalmente resecados fue del 75%, pero para otras lesiones malignas la tasa de supervivencia solo fue del 17%¹.

13. CONCLUSIONES

1. Los pacientes más frecuentemente afectados en esta patología es el género femenino-
2. El Cuadro clínico que presento este tipo de pacientes fundamentalmente es el dolor a nivel pélvico y anal, aunque en la mayoría de literatura revisada hay una gran proporción de pacientes los cuales son asintomáticos.
3. En esta serie de casos el método diagnostico que presenta mayor concordancia con los hallazgos quirúrgicos y al tacto rectal es la resonancia magnética nuclear pélvica, sin requiere mayor número de pacientes para tener un resultado significativo.
4. Un adecuado tacto rectal tiene mucho valor para definir las características en este tipo de tumores así como define la mejor conducta en estos pacientes.
5. Los tumores presacros más frecuentes presentados son de tipo benigno y de tipo quístico en esta serie de casos.
6. El abordaje quirúrgico más frecuente en estos pacientes es el abordaje posterior tipo kraske, sin embargo el planeamiento quirúrgico se debe realizar según los hallazgos al examen físico y exámenes imagenológicos.
7. Aunque no se puede en esta serie de casos definir, la recurrencia local se debe a la resección incompleta en cirugía.

14. RECOMENDACIONES

1. En esta serie de 9 pacientes no se pueden recomendar pautas ya que el número de pacientes es muy limitado.
2. Será importante en un futuro realizar la recolección de pacientes en las diferentes instituciones con esta patología y así aumentar nuestra experiencia en el manejo de esta patología infrecuente y difícil en el medio colombiano.

15. BIBLIOGRAFIA

- ¹ Jao SW, Beart Jr RW, Spencer RJ, Reiman HM, Ilstrup DM. Retrorectal tumors. Mayo Clinic experience, 1960-1979. *Dis Colon Rectum* 1985; 28(9): 644-52.
- ² Spencer RJ, Jackman R. Surgical management of precoccygeal cyst. *Surg Gynecol Obstet* 1962;115:449-52.
- ³ Glasgow SC, Birnbaum EH, Lowney JK, et al. Retrorectal tumors: a diagnostic and therapeutic challenge. *Dis Colon Rectum*. 2005;48:1581-1587.
- ⁴ Hobson KG, Ghaemmaghami V, Roe JP, et al. Tumors of the retrorectal space. *Dis Colon Rectum* 2005;48(10):1964-74.
- ⁵ Henning L. Ueber congenitale echte Sacraltumoren. *Beitr Pathol Anat*. 1900;28:593-619.
- ⁶ Virchow. Ueber die Sacralgeschwulst des Schliewener Kindes. *Berl Klin Wochenschr* 1869;6: 193-4.
- ⁷ Middelporf K. Zur Kenntniss der angerbornen Sacralgeschwulste. *Arch Pathol Anat Physiol* 1885; 101:37-44.
- ⁸ Pantoja E, Rodriguez-Ibañez I. Sacrococcygeal dermoids and teratomas: historical review. *Am J Surg* 1976; 132:377-83.
- ⁹ Barnes F. A case of Porro's operation. *Br Med J* 1885;122-3.
- ¹⁰ Page F. Large extraperitoneal dermoid cyst successfully removed through an incision across the perineum, midway between the anus and the coccyx. *Br Med J* 1891;1:406.
- ¹¹ Tokunaga Y, Mukaihara S, Tanaka M, et al. Presacral epidermal cyst found in a adult male with a high CEA content: report of an unusual case. *Surg Today*. 1994; 24:556-560.
- ¹² Enrique Canelles, José V. Roig, A, Miriam Cantos. Presacral Tumors. Analysis Of 20 Surgically Treated Patients, *Cir Esp*. 2009;85(6):371-377.
- ¹³ Kelli Bullard Dunn. Retrorectal tumors. *Surg Clin N Am* 90 2010: 163-171.
- ¹⁴ LD, Pemberton JD. Tumors ventral to the sacrum. *Ann Surg*. 1938; 107:96-106.
- ¹⁵ Uhlig BF, Johnson RL. Presacral tumors and cysts in adults. *Dis Colon Rectum*. 1975; 18:581-596.
- ¹⁶ Pidala MJ, Eisenstat TE, Rubin RJ, Salvati EP. Presacral cysts: transrectal excision in select patients. *Am Surg*. 1999; 65:112-115.

-
- ¹⁷ Melody GF. Presacral epidermoid cysts in women. *Am J Obstet Gynecol.* 1952; 63:1119-1126.
- ¹⁸ Kurosaki M, Kamitani H, Anno Y, et al. Complete familial Currarino triad: report of three cases in one family. *J Neurosurg.* 2001; 94(suppl):158-161.
- ¹⁹ Yang DM, Yoon MH, Kim HS, et al. Presacral epidermoid cyst: imaging findings with histopathologic correlation. *Abdom Imaging.* 2001; 26:79-82.
- ²⁰ Gerwig WH. Cystic tumors (Inclusion, dermoid or teratoma). *Ann Surg.* 1954; 140:81-85.
- ²¹ Ghosh J, Eglinton T, Frizelle FA, Watson AJ. Presacral tumours in adults. *Surgeon.* 2007 Feb;5(1):31-8.
- ²² Lee SC, Clum YS, Jung SE, Park KW, Kim WK. Currarino triad: Anorectal malformation, sacral bony abnormality, and presacral mass-a review of 11 cases. *J Pediatr Surg* 1997;32(1):58-61.
- ²³ Abenialhey CD, Onofrio BM, Scheithauer B, Pairolero PC, Shives TC. Surgical management of giant sacral schwannomas. *J Neurosurg* 1986; 65(3): 286-95.
- ²⁴ Haga Y, Cho H, Shinoda S, et al. Recurrent meningitis associated with complete Currarino triad in an adult. *Neurol Med Chir.* 2003;43:505-508.
- ²⁵ Nakamura S, Wakamatsu K, Tsubokawa T, Moriyasu N. Sacral epidermoid cyst communicating with the spinal CSF canal. *Childs Brain.* 1980;6:103-111.
- ²⁶ Macafee DA, Sagar PM, El-Khoury T, Hyland R. Retrorectal tumours: optimization of surgical approach and outcome. *Colorectal Dis.* 2012 Nov; 14(11): 1411-7.
- ²⁷ A. Bosca, S. Pous, M. J. Arte. Tumours of the retrorectal space: management and outcome of a heterogeneous group of diseases. *Colorectal Disease.* 2012 14, 1418–1423.
- ²⁸ Riojas CM, Hahn CD, Johnson EK. Presacral epidermoid cyst in a male: A case report and literatura review. *J Surg Educ.* 2010 Jul-Aug; 67(4):227-32.
- ²⁹ Ludwig KA, Kalady MF. Trans-sacral approaches for presacral cyst/rectal tumor. *Oper Tech Gen Surg.* 2005:126-136.