Lipoma isquiorrectal gigante como causa de dolor anal, incontinencia fecal y dispareunia. Una asociación excepcional

Giant ischiorectal lipoma as a cause of anal pain, fecal incontinence and dyspareunia. An exceptional association

Ignacio A. Gemio del Rey , Ayhlín J. López Marcano , Aníbal A. Medina Velasco , Roberto de la Plaza Llamas , José M. Ramia

Servicio de Cirugía
General y del Aparato
Digestivo.
Hospital Universitario de
Guadalajara. España.

Los autores declaran no
tener conflictos
de interés.

Conflicts of interest
None declared.

Correspondencia
Correspondence:
Ignacio A. Gemio del
Rey
E-mail:
ignaciogemio87@gmail.
com

Recibido | Received
21-12-21
Aceptado | Accepted
19-01-21

RESUMEN

Los lipomas suponen el 50% de los tumores de partes blandas. Podrían comprimir estructuras adyacentes. Presentamos el caso de una mujer de 49 años con dolor anal intenso asociado a urgencia defecatoria, tenesmo, incontinencia y dispareunia. Presentaba tumoración blanda a nivel del glúteo derecho compatible con lipoma. La resonancia magnética identificó una masa de 15,7 × 9 × 6 cm, de apariencia encapsulada, que se extendía por la fosa isquioanal e isquiorrectal con impronta sobre el músculo elevador del ano, desplazando el recto. Se efectuó exéresis en bloque, con alta en 48 horas sin complicaciones. El informe de Anatomía Patológica definitivo fue lipoma. Valoramos la asociación de lipoma e incontinencia fecal con una búsqueda en PubMed. Se obtuvieron 87 artículos de los cuales ninguno respondía al objeto del estudio. Esta sintomatología es un fenómeno excepcional en la literatura, que se diagnostica fundamentalmente mediante RM y ecoendoscopia. Gran resultado funcional tras la exéresis.

■ **Palabras clave:** lipoma, incontinencia, dispareunia, tenesmo.

ABSTRACT

Lipomas account for 50% of soft-tissue tumors and may compress adjacent structures. We report the case of a 49-year-old female patient with intense anal pain associated with defecation urgency, tenesmus, incontinence and dyspareunia. A soft tumor was present in the right buttock suggestive of lipoma. On magnetic resonance imaging an apparently encapsulated mass with a size of 15.7 × 9 × 6 cm was identified extending through the ischioanal fossa and ischiorectal fossa, displacing the levator ani muscle and rectum. The lesion was excised en bloc and the patient was discharged 48 hours later without complications. The pathology report concluded that the lesion corresponded to a lipoma. We performed a bibliographic search in PubMed to assess the association between lipoma and fecal incontinence; Of the 87 articles retrieved, none of them responded to the subject of the study. These symptoms are exceptional in the literature. The diagnosis is made mainly with magnetic resonance imaging and endoscopic ultrasound. An excellent functional outcome was achieved with surgical excision.

■ **Keywords:** lipoma, incontinence, dyspareunia, tenesmus.

ID ORCID: Ignacio A. Gemio del Rey, 0000-0002-3436-6401; Ayhlín J. López Marcano, 0000-0003-1095-3887; Aníbal A. Medina Velasco, 0000-0001-5084-1615; Roberto de la Plaza Llamas, 0000-0001-9501-5480; José M. Ramia, 0000-0003-1186-953X.

Los lipomas son los tumores de partes blandas más frecuentes (50% del total)¹. Su progresión a liposarcoma es rara². Según su tamaño, puede comprimir y desplazar estructuras adyacentes, produciendo diferente sintomatología¹.

Por su excepcionalidad clínica, presentamos el caso de una mujer de 49 años, con antecedentes de síndrome depresivo con buen control farmacológico, que consultó electivamente por la presencia de dolor anal intenso (9 sobre 10 en la escala EVA) asociado a urgencia defecatoria, tenesmo, dispareunia e incontinencia para gas y heces moderada/grave (puntuación de 14 en la escala de Wexner³), todo ello de varios meses de evolución, con importante repercusión en su calidad de vida. A la exploración presentaba tumoración blanda a nivel del glúteo derecho, con estigmas cutáneos de infección previa ya resuelta, de consistencia

elástica, compatible con lipoma, separada del margen anal aproximadamente 3 centímetros. No impresionaba estar adherida a planos profundos. Al tacto rectal presentaba un esfínter levemente hipotónico, y a unos 3 cm del margen anal externo (MAE) se objetivaba una compresión extrínseca franca no obstructiva que generaba abombamiento lateral.

Se realizó estudio ecográfico, describiéndose un aumento difuso de volumen e hiperecogenicidad del tejido celular subcutáneo, que producía efecto masa, por lo que se amplió el estudio con resonancia magnética (RM). En dicha prueba se identificó una masa de 15,7 × 9 × 6 cm, de apariencia encapsulada y no lobulada, que se extendía desde el tejido celular subcutáneo del glúteo derecho hacia planos profundos por la fosa isquioanal e isquiorrectal con impronta sobre el músculo elevador del ano, desplazando también el recto

■ FIGURA 1

Imagen de resonancia magnética en la que se objetiva el lipoma (flecha negra) de gran tamaño desplazando el recto y el músculo elevador del ano (flecha blanca)

(Fig. 1). Se localizaba en la proximidad del MAE e impresionaba comprometer los nervios del plexo sacro. El comportamiento era análogo a la grasa. Debido a su gran tamaño, no se pudo descartar que se tratase de una tumoración mesenquimal maligna, por lo que se realizó biopsia con aguja gruesa (BAG) de la masa, bajo control ecográfico, con resultado histológico de tejido adiposo maduro.

Se indicó cirugía electiva practicada bajo anestesia general, con paciente en decúbito prono (posición de navaja). Se realizó incisión en huso en la fosa isquiorrectal, objetivando la existencia de una tumoración de aspecto lipomatoso de gran tamaño, de planos bien definidos y encapsulada, que se encontraba en contacto con la pared rectal sin infiltrarla, desplazando cranealmente el músculo elevador del ano. Se efectuó exéresis en bloque de la lesión. La intervención duró una hora. No hubo complicaciones posoperatorias, y el alta hospitalaria se produjo a las 48 horas.

El estudio anatomopatológico de la lesión fue lipoma maduro totalmente encapsulado de 20 × 13 × 6 cm (Fig. 2). Por su gran tamaño, se realizó para descartar malignidad evaluación de la amplificación del gen MDM2 (12q15)⁴ mediante técnica de FISH sobre núcleos de interfase (sonda LSI MDM2/CEP12, Vysis) con resultado negativo.

Al mes de la intervención, la paciente se encontraba con la herida adecuadamente cicatrizada y con desaparición completa de la sintomatología. Se realizó seguimiento durante 6 meses, sin recidiva sintomática.

Para valorar la asociación de lipoma isquiorrectal con la presencia de sintomatología anorrectal, realizamos una búsqueda bibliográfica en PubMed actualizada el 16 de diciembre de 2020 con la siguiente estrategia: (Lipoma) AND ((Fecal incontinence) OR (Incontinence, Fecal) OR (Incontinences, Fecal) OR (ano-rectal)).

Se obtuvo un total de 87 artículos de los cuales ninguno trata el objeto a estudio, pues no establecen relación entre la existencia de un lipoma en la región anorrectal y sintomatología perineal.

En dichos artículos se hace fundamentalmente referencia a la relación entre lipomas perineales y malformaciones congénitas, la mayoría de ellos diagnosticados de manera prenatal o en los primeros días de vida, sin hacer referencia a su diagnóstico en la edad adulta sin malformaciones asociadas. Los únicos artículos que hacen referencia a un caso clínico con sintomatología anorrectal similar al nuestro en la edad adulta fueron publicados por Bradley D. Shepherd y cols.⁵. Sin embargo, ambos lipomas no eran perineales, sino presacros, por lo que no pueden ser considerados similares, ni por su localización ni por el abordaje quirúrgico (se realizó exéresis por laparotomía media en los dos casos).

Como se deduce de la revisión sistemática de la literatura realizada, podemos afirmar que el presente caso resulta excepcional. Se trata de una patología benigna que provoca una alteración anatómica importante (compresión y desplazamiento del recto y el elevador del ano, así como posible afectación del plexo presacro por su proximidad) y con unas consecuencias que provocan un importante deterioro de la calidad de vida del paciente (dolor anal, urgencia defecatoria, incontinencia para gas y heces, tenesmo y dispareunia).

El diagnóstico fundamentalmente es clínico y radiológico; el mayor rendimiento se obtuvo con la rea-

■ FIGURA 2

Pieza de resección quirúrgica del lipoma

lización de RM pélvica, tomografía computarizada (TC) o ecoendoscopia o combinación de los tres estudios⁵.

El tratamiento consiste en la exéresis quirúrgica completa de la lesión. Dado el tamaño importante que suelen tener estas lesiones, se hace necesario am-

pliar el estudio anatomopatológico con amplificación del gen MDM2 para descartar lesiones mesenquimales con potencial maligno⁴. Los resultados quirúrgicos a 6 meses que hemos obtenido son muy buenos, con desaparición completa de la sintomatología.

■ ENGLISH VERSION

Lipomas are the most common (50%) soft-tissue tumors¹. Progression to liposarcoma is rare². Depending on their size, they may cause compression and displacement of adjacent structures producing different symptoms¹.

We chose this case because it is clinically exceptional. A 49-year-old female patient with a history of depression well-controlled with drug therapy attended a scheduled visit due to severe anal pain (9/10 on the VAS scale) associated with defecation urgency, tenesmus, dyspareunia and moderate/severe gas and fecal incontinence (Wexner score = 14³) over the past months, with significant impact on her quality of life. On examination, an elastic soft tumor was observed at the level of the right buttock suggestive of lipoma about 3 centimeters distant from the anal verge. There were also skin stigmata of a previous infection already resolved. The tumor did not seem to be attached to the deep planes. On rectal examination, the sphincter was slightly hypotonic, and a frank, non-obstructive extrinsic compression was found at about 3 cm from the external anal verge (EAV), causing lateral bulging.

The ultrasound scan showed hyperechoic subcutaneous tissue with diffuse enlargement and mass effect. A magnetic resonance imaging scan was ordered. An encapsulated, non-lobulated mass with a size of 15.7 × 9 × 6 cm was identified in the right buttock, extending from the subcutaneous tissue to the deep planes through the ischioanal fossa and ischiorectal fossa, displacing the levator ani muscle and rectum (Fig. 1). The mass had the characteristics of adipose tissue, was close to the EAV and affected the nerves of the sacral plexus. Considering its large size, a malignant mesenchymal tumor could not be ruled out, and core needle biopsy (CNB) of the mass was performed under ultrasound guidance. The histologic examination showed mature adipose tissue.

Elective surgery was indicated under general anesthesia, with the patient in the prone position (jackknife position). An elliptical incision was made in the ischiorectal fossa, revealing a large encapsulated lipomatous tumor with well-defined planes, in contact with the rectal wall but without infiltrating it, with upward displacement of the levator ani muscle. The lesion was excised en bloc. Operative time was 1 hour.

■ FIGURE 1

Magnetic resonance imaging showing the large lipoma (black arrow) displacing the rectum and the levator ani muscle (white arrow)

The postoperative period was uneventful and the patient was discharged 48 hours after the procedure.

The pathological diagnosis was encapsulated mature lipoma with a size of 20 × 13 × 6 cm (Fig. 2). Further cytogenetic testing was necessary to rule out malignancy due to the tumor size. MDM2 gene amplification (12q15) by FISH on interphase nuclei⁴ was performed using Vysis MDM2/CEP 12 probe, with negative results.

One month later the wound had healed and she was free of symptoms. She remained asymptomatic during the 6-month follow-up.

We performed a literature search in PubMed, updated on December 16, 2020, using the following strategy: (Lipoma) AND [(Fecal incontinence) OR (Incontinence, Fecal) OR (Incontinences, fecal) OR (anorectal)] to assess the association between ischiorectal lipoma and the presence of anorectal symptoms.

A total of 87 articles were retrieved, but none of them could establish any association between anorectal lipoma and perineal symptoms.

These articles mainly deal with the relationship between perineal lipomas and congenital defects, most of them diagnosed during intrauterine life or in the

first days of life, with no reference to their diagnoses in adults without associated malformations. The only case reports with anorectal symptoms in an adult patient were published by Bradley D. Shepherd et al.⁵. Yet, both lipomas were not located in the perianal region but were anterior to the sacrum, so they cannot be considered similar to our case because of their location and surgical approach (they were resected through midline laparotomy).

Based on the systematic review of the literature, we can ensure that the present case is exceptional. This benign condition results in significant anatomical abnormalities (compression and displacement of the rectum and levator ani muscle, and possible involvement of the presacral plexus due to its proximity) producing significant impairment in the patient's quality of life (anal pain, defecation urgency, gas and fecal incontinence, tenesmus and dyspareunia).

The diagnosis is mainly clinical and radiological; the best results were obtained with MRI of the pelvis, computed tomography (CT) scan, endoscopic ultrasound or a combination of the three tests⁵.

Surgical treatment is indicated with complete excision of the lesion. Given the large size of these lesions, it is necessary to perform cytogenetic analysis to exclude MDM2 gene amplifications to rule out potentially malignant mesenchymal lesions⁴. The surgical results at 6 months are favorable with complete absence of symptoms.

■ FIGURE 2

Surgical resection specimen of lipoma

Referencias bibliográficas /References

1. Ricci JA, et al. Untreated for 20 Years: A 14 Kilogram Subcutaneous Lipoma. *World J Plast Surg.* 2018;7(3):368-71. doi: 10.29252/wjps.7.3.368.
2. Tsagkozis P, et al. A Low-Grade Myxoid Liposarcoma Arising in a Deep-Seated Conventional Lipoma. *Int J Surg Pathol.* 2019;27(8):919-22. doi: 10.1177/1066896919857147.
3. Flández R, J, et al. Escalas de evaluación en incontinencia fecal. *Gastroenterol Latinoam.* 2016; 27(4): 226-30.
4. Kammerer-Jacquet SF, et al. Differential diagnosis of atypical lipomatous tumor/well-differentiated liposarcoma and dedifferentiated liposarcoma: utility of p16 in combination with MDM2 and CDK4 immunohistochemistry. *Hum Pathol.* 2017;59:34-40. doi: 10.1016/j.humpath.2016.08.009.
5. Shepherd BD, et al. Endoscopic ultrasound diagnosis of pelvic lipoma causing neurologic symptoms. *Dig Dis Sci.* 2006;51(8):1364-6. doi: 10.1007/s10620-006-9106-4.