

PRESENTACIÓN DE CASO

Cistoadenoma mucinoso biliar: Un reto diagnóstico

Mucinous biliary cystadenoma: A diagnostic challenge

Jesús Andrés Henao-Zapata¹, Yuber Fabián Alarcón², José Antonio Puentes-Díaz²,
Rafael Humberto Hernández-Bermúdez³, Juan Carlos Corredor-Sandoval²,
Ricardo Francisco Carvajal-Moncada², Luis Carlos Ruiz²

- 1 Estudiante de medicina, Pontificia Universidad Javeriana, Cali, Colombia.
- 2 Médico, especialista en Cirugía general, Hospital Regional de Duitama, Duitama, Colombia.
- 3 Médico, especialista en Cirugía general; jefe, departamento de Cirugía, Hospital Regional de Duitama, Duitama, Colombia.

Resumen

Introducción. El cistoadenoma mucinoso biliar es una neoplasia rara con alta probabilidad de malignidad. Su diagnóstico es un reto ya que se asemeja a otras masas benignas que pueden encontrarse en el hígado.

Caso clínico. Mujer de 21 años con sensación de masa en hipocondrio derecho, a quien se le realizan marcadores tumorales y estudios de imágenes concluyendo que se trataba de un cistadenoma mucinoso biliar.

Resultado. Se presenta el caso de una paciente con cistoadenoma mucinoso biliar, diagnosticada y tratada exitosamente con cirugía.

Conclusión. El diagnóstico de cistoadenoma mucinoso biliar se confirma mediante marcadores tumorales y estudios radiológicos, y su tratamiento es quirúrgico debido al riesgo de malignidad.

Palabras clave: cistoadenoma mucinoso; hígado; hepatomegalia; neoplasias hepáticas; biomarcadores de tumor; inmunohistoquímica.

Abstract

Introduction. Biliary mucinous cystadenoma is a rare neoplasm with a high probability of malignancy. Its diagnosis is a challenge since it resembles other benign masses that can be found in the liver.

Clinical case. A 21-year-old woman with a sensation of a mass in the right hypochondrium, who underwent tumor markers and imaging studies, concluding with a diagnosis of biliary mucinous cystadenoma.

Result. A case of a patient with biliary mucinous cystadenoma diagnosed and successfully treated by surgery is presented.

Fecha de recibido: 14/11/2021 - Fecha de aceptación: 22/02/2022 - Publicación en línea: 31/12/2022

Correspondencia: Jesús Andrés Henao-Zapata, Carrera 56 # 1B – 81, Cali, Colombia. Teléfono: +57 3104494380

Dirección electrónica: jesus.henaoz@hotmail.com

Citar como: Henao-Zapata JA, Alarcón YF, Puentes-Díaz JA, Hernández-Bermúdez RH, Corredor-Sandoval JC, Carvajal-Moncada RF, Ruiz LC. Cistoadenoma mucinoso biliar: Un reto diagnóstico. Rev Colomb Cir. 2023;38:369-73. <https://doi.org/10.30944/2011758.1933>

Este es un artículo de acceso abierto bajo una Licencia Creative Commons - BY-NC-ND <https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/deed.es>

Conclusion. The diagnosis of biliary mucinous cystadenoma is confirmed by tumor markers and radiological studies, and its treatment is surgical due to the risk of malignancy.

Keywords: mucinous cystadenoma; liver; hepatomegaly; hepatic neoplasms; tumor biomarkers; immunohistochemistry.

Introducción

El término cistoadenoma mucinoso biliar (CMB), agrupa dos tipos poco prevalentes de neoplasias raras, que incluyen el cistoadenoma biliar (CB) y el cistoadenocarcinoma (CAC)^{1,2}. Corresponden al 5 % de todas las lesiones quísticas del hígado³⁻⁵. En cuanto a la prevalencia, el CB es mucho más común en mujeres mayores de 40 años que en hombres, mientras que en el CAC no hay diferencia entre los sexos^{1,3}. En términos generales, el CB es una neoplasia benigna, sin embargo, en un 20 % de los casos puede transformarse en maligna, por lo que se recomienda su resección quirúrgica⁵⁻⁷.

El objetivo de este artículo fue presentar una paciente de 21 años en quien se hizo el diagnóstico de un cistoadenoma mucinoso biliar, y fue tratada de forma exitosa mediante cirugía.

Caso clínico

Paciente femenina de 21 años de edad, sin antecedentes de importancia, quien consultó al servicio de urgencias del Hospital Regional de Duitama, Colombia, por dolor abdominal y diarrea; en la anamnesis informó además sensación de masa en el hipocondrio derecho de cuatro años de evo-

lución. Al examen físico se encontró el hígado aumentado de tamaño. Se solicitó una ecografía abdominal que informó una lesión quística gigante en el hipocondrio derecho, con contenido particulado en su interior, sin lograr identificar el origen; posible quiste hepático vs. quiste de colédoco.

Se realizó una tomografía computarizada (TC) abdominal con contraste que informó un quiste hepático complejo gigante con 2000 ml de contenido (figura 1). En la resonancia magnética nuclear se describió un aumento del tamaño hepático a expensas de lóbulo derecho, en relación con la presencia de la lesión quística gigante, redondeada, de paredes gruesas, sin realce ni restricción a la difusión, con contenido hemático en la zona de declive, que comprometía parte de los segmentos V, VI y VIII, con diámetros mayores de 16,7 x 15,1 x 11,8 cm, con crecimiento exofítico y efecto compresivo sobre el riñón derecho, cabeza del páncreas, ángulo hepático del colon, hilio y lóbulos hepáticos, vesícula y vena cava inferior (figura 2).

Se llevó a cirugía para drenaje y escisión por vía laparoscópica, encontrando un quiste hepático gigante de aproximadamente 20 x 20 cm, con paredes gruesas y muy vascularizadas, y con contenido viscoso cristalino (figura 3).

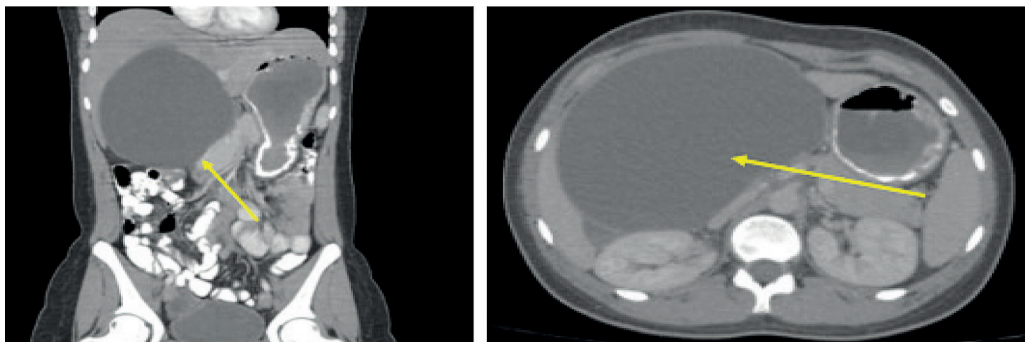


Figura 1. A: Tomografía computadorizada contrastada de abdomen, corte coronal. La flecha señala la masa hepática. B: Corte axial. La flecha señala la masa hepática. Elaboración propia de los autores

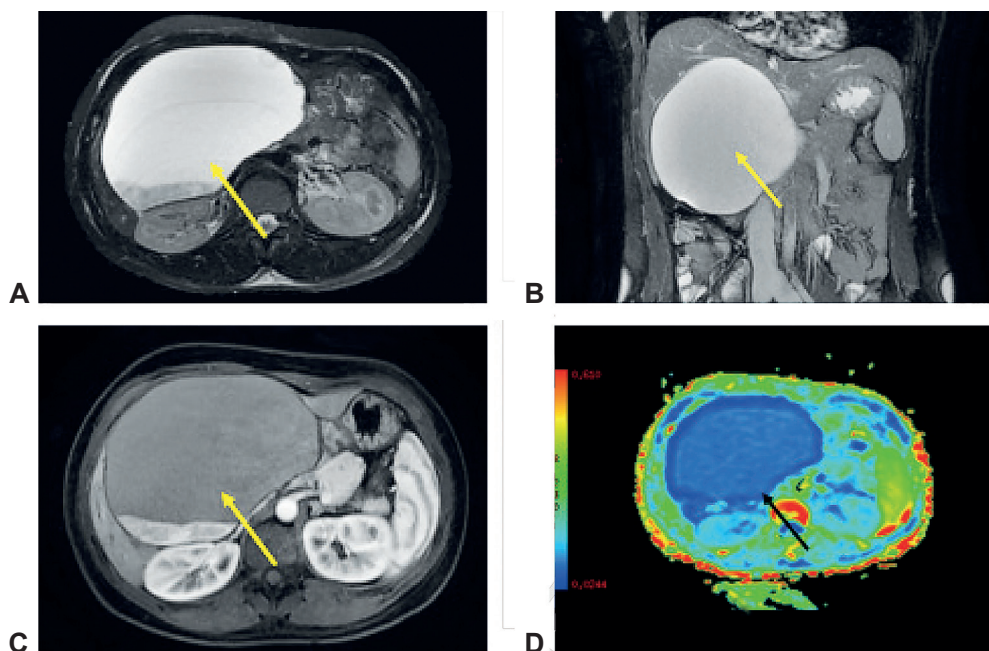


Figura 2. A: Resonancia nuclear magnética de abdomen, corte axial T2. B: Corte coronal. C: Corte axial T1. D: Corte axial técnica de difusión. La flecha señala la masa hepática. Fuente: Elaboración propia de los autores.

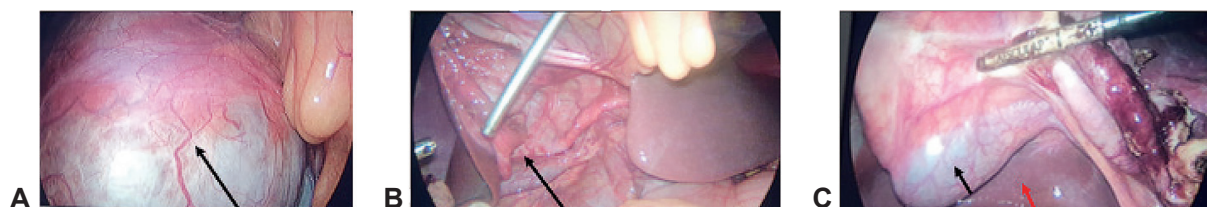


Figura 3. A: Imagen panorámica del cistoadenoma mucinoso biliar. B: Cápsula del cistoadenoma mucinoso biliar. C: Flecha negra corresponde al cistoadenoma y la flecha roja corresponde a hígado. Fuente: Imagen tomada en cirugía por los autores.

El hígado, la vesícula y las vías biliares tenían aspecto normal. Se resecó la pared libre del quiste y se dejó el resto de la lesión dentro de ella.

El informe de patología reportó una neoplasia mucinosa tipo cistoadenoma biliar mucinoso con cambios displásicos leves de bajo grado versus quiste hepático solitario de tipo biliar. Se realizaron estudios de inmunohistoquímica que confirmaron el diagnóstico.

Discusión

El cistoadenoma mucinoso biliar es una neoplasia poco común, que generalmente se presenta en mujeres, por lo que existe la teoría de un com-

ponente hormonal que incide en la proliferación e incidencia del CB en la población femenina^{8,9}. Williamson et. al.⁵ demostraron en su estudio la presencia de receptores de progesterona y estrógeno en el epitelio de un CMB. El CMB suele localizarse en un 85 % intrahepático, predominantemente en el lóbulo derecho^{5,6,10}. Su forma de presentación más común es como una gran masa quística a nivel del hipocondrio derecho, cuyo tamaño varía entre 10 y 30 cm. Aunque suele ser asintomática^{1,3,5,9,11}, en algunos casos puede haber ictericia secundaria a obstrucción, dolor abdominal o compresión de estructuras subyacentes^{6,10}.

El diagnóstico del CMB suele ser imagenológico. En la ecografía se puede visualizar una estructura de grosor variable, anecoica, quística, con tabiques y cavidades llenas de líquido. Los otros estudios imagenológicos, como la tomografía computarizada contrastada y la resonancia nuclear magnética muestran una estructura tabicada con líquido en su interior y permiten identificar las relaciones que tiene el CMB con las estructuras intrahepáticas y extrahepáticas^{3,8,9}.

Los estudios histopatológicos identifican una estructura con un epitelio columnar, cuboidal o plano mucinoso, el cual puede tener zonas de transición de tejido benigno a células malignas y un tejido subyacente hialino, fibroso o “tipo – ovárico”. El diagnóstico definitivo se hace mediante los marcadores de inmunohistoquímica. En el caso del CMB se pueden encontrar positivos los siguientes marcadores en el epitelio o el estroma: el receptor de estrógeno, la inhibina, el receptor de progesterona, citoqueratina 7 (CK7), CK8, CK18 y CK19, entre otros¹². En el caso presentado, se informó CK7, CK19, receptores de progesterona, inhibina y desmina positivos.

Varios autores han demostrado la utilidad de marcadores tumorales como el CA 19-9, la α -fetoproteína y el antígeno carcinoembrionario, los cuales pueden estar elevados en algunos casos, pero aún faltan estudios que confirmen la utilidad de estos exámenes en el diagnóstico de CBM^{3,7,8,11,13}. Dentro de los diagnósticos diferenciales se deben tener en cuenta el quiste hepático simple, quistes hidatídicos causados por equinococos, abscesos hepáticos, sarcoma embrionario y quistes post-traumáticos, entre otros³.

La recomendación principal sobre el tratamiento del CMB es la resección quirúrgica completa dada su alta tasa de conversión a malignidad y recidiva¹⁴. Las dos técnicas más utilizadas son la resección completa a través de hepatectomía o lobectomía y la enucleación, aunque esta última es solo una alternativa en caso de que no haya invasión al parénquima hepático^{4,6,10}.

La paciente presentada fue remitida a una institución de mayor complejidad donde el grupo de cirugía hepatobiliar indicó seguimiento image-

nológico para decidir posteriormente el tipo de abordaje quirúrgico definitivo.

Conclusión

El cistoadenoma biliar mucinoso es una neoplasia poco prevalente que suele ser muy difícil de identificar debido a su similitud con otras entidades, como los quistes hepáticos simples. Una vez diagnosticado se debe hacer una resección quirúrgica completa por su alta tasa de recidiva y de transformación maligna.

Cumplimiento de normas éticas

Consentimiento informado: se cuenta con el consentimiento informado por parte de la paciente, quien aceptó la publicación de su caso clínico, incluyendo las imágenes.

Conflictos de interés: los autores declararon que no tienen ningún conflicto de interés.

Fuente de financiación: este artículo fue financiado por los autores.

Contribución de los autores

- Concepción y diseño del estudio: Jesús Andrés Henao-Zapata, Yuber Fabián Alarcón, José Antonio Puentes-Díaz, Rafael Humberto Hernández-Bermúdez, Juan Carlos Corredor-Sandoval, Ricardo Francisco Carvajal-Moncada, Luis Carlos Ruiz.
- Adquisición de datos: Jesús Andrés Henao-Zapata, Yuber Fabián Alarcón, José Antonio Puentes-Díaz, Rafael Humberto Hernández-Bermúdez, Juan Carlos Corredor-Sandoval, Ricardo Francisco Carvajal-Moncada, Luis Carlos Ruiz.
- Análisis e interpretación de datos: Jesús Andrés Henao-Zapata, Yuber Fabián Alarcón, José Antonio Puentes-Díaz, Rafael Humberto Hernández-Bermúdez, Juan Carlos Corredor-Sandoval, Ricardo Francisco Carvajal-Moncada, Luis Carlos Ruiz.
- Redacción del manuscrito: Jesús Andrés Henao-Zapata, Yuber Fabian Alarcón, José Antonio Puentes-Díaz.
- Revisión crítica: Jesús Andrés Henao-Zapata, Yuber Fabian Alarcón, José Antonio Puentes-Díaz.

Referencias

1. Dudeja V, Fong Y. Hígado. En: Townsend CM, Beauchamp RD, Evers BM, Mattox KL. Sabiston Tratado de cirugía: Fundamentos biológicos de la práctica quirúrgica moderna. 20 edición. Barcelona: Elsevier; 2018. p. 1418-1481.

2. Cheng EY, Zarrinpar A, Geller DA, Goss JA, Busuttil RW. Hígado. En: Brunnicardi FC, Andersen DK, Billiar TR, Dunn DL, Hunter JG, Matthews JB, Pollock RE, editores. *Schwartz's Principios de cirugía*. 10 edición. México DF: McGraw-Hill; 2015. p. 1263-1307.
3. Soares KC, Arnaoutakis DJ, Kamel I, Anders R, Adams RB, Bauer TW, et al. Cystic neoplasms of the liver: Biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma. *J Am Coll Surg*. 2014;218:119-28. <https://doi.org/10.1016/j.jamcollsurg.2013.08.014>
4. Lee CW, Tsai HI, Lin YS, Wu TH, Yu MC, Chen MF. Intrahepatic biliary mucinous cystic neoplasms: Clinicoradiological characteristics and surgical results. *BMC Gastroenterol*. 2015;15:1-9. <https://doi.org/10.1186/s12876-015-0293-3>
5. Williamson JML, Rees JR, Pope I, Strickland A. Hepatobiliary cystadenomas. *Ann R Coll Surg Engl*. 2013;95:507-10. <https://doi.org/10.1308/003588413X13629960046633>
6. Manuel-Vásquez A, Fuerte-Ruiz S. Mucinous hepatic cystic neoplas: An uncommon cystic lesion in the liver. *Rev Esp Enferm Dig*. 2015;107:643-4. <https://doi.org/10.17235/reed.2015.3698/2015>
7. Beuran M, Venter MD, Dumitru L, Beuran M, Venter MD, Dumitru L. Large mucinous biliary cystadenoma with "ovarian-like" stroma: A case report. *World J Gastroenterol*. 2006;12:3779-81. <https://doi.org/10.3748/wjg.v12.i23.3779>
8. Teoh AYB, Ng SSM, Lee KF, Lai PBS. Biliary cystadenoma and other complicated cystic lesions of the liver: Diagnostic and therapeutic challenges. *World J Surg*. 2006;30:1560-6. <https://doi.org/10.1007/s00268-005-0461-7>
9. Regev A, Reddy KR. Diagnosis, and management of cystic lesions of the liver. UpToDate. 2020. Disponible en: <https://www.uptodate.com/contents/diagnosis-and-management-of-cystic-lesions-of-the-liver>
10. Gonzalez M, Majno P, Terraz S, Morel P, Rubbia-Brandt L, Mentha G. Biliary cystadenoma revealed by obstructive jaundice. *Dig Liver Dis*. 2009;41:2008-10. <https://doi.org/10.1159/000226254>
11. Suriawinata A. Pathology of malignant liver tumors. UpToDate. 2020. Disponible en: <https://www.uptodate.com/contents/pathology-of-malignant-liver-tumors>
12. Juárez-Granda HU, Cornejo-Carrasco CE, Ramos-Castillo WE. Cistoadenoma mucinoso hepático. *Revista de la Facultad de Medicina Humana*. 2019;19:118-22. <https://doi.org/10.25176/RFMH.v19.n2.2075>
13. Tholomier C, Wang Y, Aleynikova O, Vanounou T, Pelletier JS. Biliary mucinous cystic neoplasm mimicking a hydatid cyst: A case report and literature review. *BMC Gastroenterol*. 2019;19:1-8. <https://doi.org/10.1186/s12876-019-1001-5>
14. Sharma S, Sasaki K, Allende D, Bennett A, Aucejo FN. Biliary mucinous cystic neoplasm: a classic presentation of a rare neoplasm. *J Gastrointest Surg*. 2019;23:874-6. <https://doi.org/10.1007/s11605-018-3768-z>