

Adenoma papilar del conducto cístico. Una afección infrecuente: Reporte de un caso

Marco Ceroni V.⁽¹⁾, Carlos Harz B.⁽¹⁾ y Javier Elorza D.⁽²⁾

CASE REPORT: PAPILLARY ADENOMA OF THE CYSTIC DUCT: AN UNCOMMON CONDITION

Papillary adenoma of the biliary ducts is a rare benign tumor, that often present as obstructive jaundice and abdominal pain. Most of the tumors are localized in the distal main bile duct and very uncommonly are observed in the cystic duct. These tumors has been associated to chronic inflammation and genetic disorders progressing from adenoma to carcinoma. We report a case of a 88 years old woman presenting epigastric and right upper quadrant abdominal pain. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography showed a polypoid lesion arising from the cystic duct and extending into the common bile duct. A partial resection was performed and samples of the tumor tissue were obtained during this procedure. Histology confirmed a papillary adenoma of the biliary duct. A review of literature is presented.

Key words: Papillary adenoma, bile duct.

Introducción

La mayoría de las lesiones neoplásicas de la vía biliar, observadas en la práctica clínica son malignas¹, las benignas se detectan en forma esporádica^{1,2}. El adenoma de la vía biliar extrahepática es una lesión infrecuente, estimándose en 100 los casos publicados en la literatura en inglés^{3,4}. Aún más infrecuente es su origen en el conducto cístico. El punto crítico en el manejo de estos pacientes, es descartar la presencia de un adenocarcinoma, en el preoperatorio, debido a la dificultad en la obtención de muestras suficientes para el análisis anatomopatológico o citológico².

Por este motivo, estimamos de interés comunicar un caso de adenoma de vía biliar originado en el conducto cístico, con displasia

leve a moderada, diagnosticado por biopsias obtenidas por colangiopancreatografía endoscópica (CPRE), tratado con resección parcial durante el mismo procedimiento mediante asa de Dormia.

Se asocia a los adenomas como precursores de los carcinomas, en una secuencia similar a lo que ocurre en el colon. Es importante entonces el tratamiento de este tipo de lesiones, para prevenir enfermedad obstructiva de la vía biliar y el desarrollo de carcinoma de la vía biliar.

Caso Clínico

Paciente de 88 años, sexo femenino, con antecedentes de HTA de larga data, en trata-

⁽¹⁾ The Latin American WGO and OMED Advanced Gastrointestinal Endoscopy Training Center. Clínica Alemana. Universidad del Desarrollo.

⁽²⁾ Unidad Anatomía Patológica. Hospital San Camilo, San Felipe.

Recibido: 7/8/2007

Aceptado: 27/9/2007

miento con régimen hiposódico. Colecistectomizada con cirugía “abierta” hace 30 años. Antecedentes familiares de cáncer cerebral y gástrico en dos hijos. Presenta una historia de reflujo gastroesofágico, principalmente en las noches, de un año de evolución asociado a dolor en hipocondrio derecho de carácter urente, intermitente, sin relación con la ingesta de alimentos. Sin ictericia, coluria, acolia o baja de peso. Se realizó una ecografía abdominal, la cual mostró una vía biliar extrahepática dilatada, con una imagen sospechosa de cálculo a nivel del conducto cístico. Se realizó CPRE, en la cual se observó una imagen sugerente de un cálculo gigante (35 mm) en el conducto hepático común (Figura 1), que no se logró extraer con el canastillo de Dormia ya que aparecía adherido o fijo. Se instaló una prótesis (Figura 2) y se programó para litotripsia (litotriptor lithocrush). En la siguiente CPRE se observó papila intradiverticular con prótesis *in situ*, que se retiró. Se canuló la papila y contrastó la vía biliar con balón de oclusión observándose dilatación masiva de la vía biliar extrahepática, al igual que del muñón cístico dentro del cual se constató un defecto de llene radiolúcido de 3 cm de diámetro, que no ocluía

el colédoco (Figura 3). La vía biliar intrahepática se observó ligeramente dilatada. Se atrapó el defecto de llene, con canasto de Dormia, se resecó un segmento, comprobándose que se trataba de un tumor polipoideo a nivel del muñón cístico (Figura 4). Se realizaron repetidos pasos de la canastilla de Dormia, con extracción de fragmentos sugerentes de neoplasia de la vía biliar (Figura 5). Los fragmentos resecados que se liberaron en el duodeno se enviaron para estudio anatomopatológico diferido. Dado que no había obstrucción del hepatocolédoco no se dejó prótesis. La exploración fue negativa para cálculos. La histopatología de las muestras obtenidas, estaba constituida por estructuras papilares con presencia de epitelio de revestimiento de tipo intestinal con displasia leve a moderada (Figura 6). Se observó la presencia de células globosas de tipo caliciforme interpuestas, con citoplasma positivo para la tinción de azul de Alcian (Figura 7) y lámina propia con moderado infiltrado inflamatorio linfocitario e ingurgitación capilar.

La conclusión del estudio histopatológico fue: adenoma papilar de tipo intestinal. Posterior al procedimiento no presentó complicaciones o nueva sintomatología.

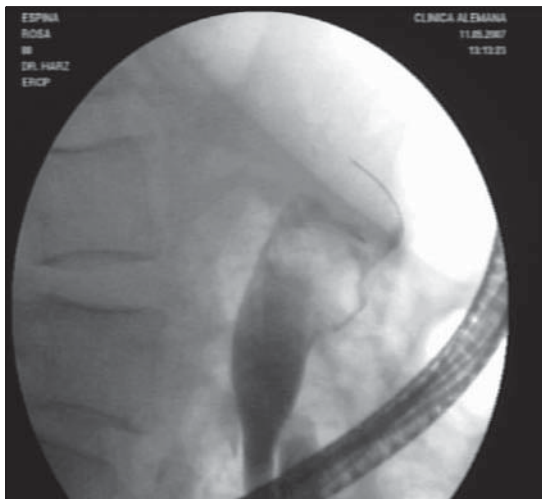


Figura 1. Imagen de defecto de llene, compatible con coledocolitiasis del hepático común, del tamaño de un cuerpo vertebral.



Figura 2. Instalación de prótesis. Papila entre dos divertículos.



Figura 3. Tumor papilar de conducto cístico, con extensión a colédoco.

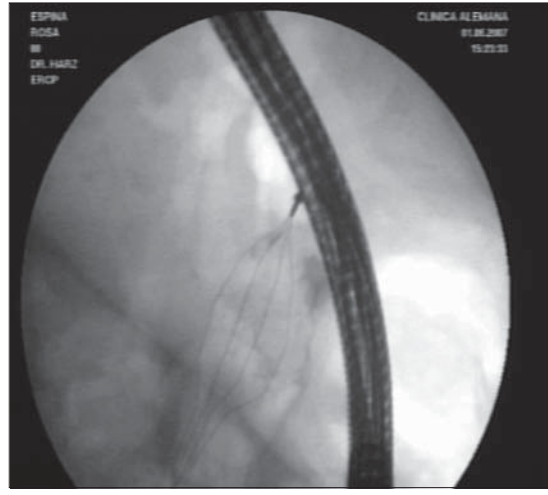


Figura 4. Extracción de fragmentos de tumor papilar con canastillo de Dormia, para estudio Histológico.



Figura 5. Extracción de fragmentos de tumor papilar de vía biliar hacia duodeno.

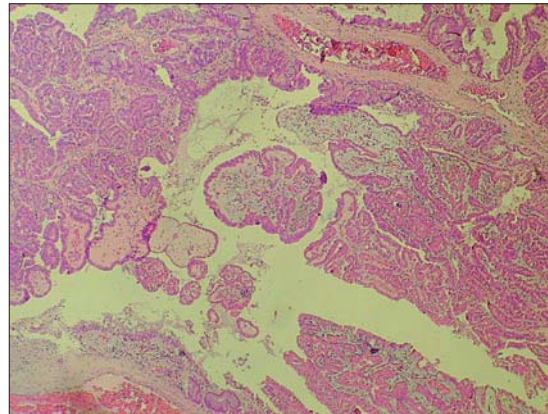


Figura 6. Estudio histológico con hematoxilina-eosina muestra estructuras papilares con presencia de epitelio de revestimiento de tipo intestinal con displasia leve a moderada.

Discusión

Los adenomas papilares (papilomas) de la vía biliar son tumores benignos poco frecuentes, desconociéndose su real incidencia y potencial de malignización⁵. Pueden localizarse tanto en la vía biliar intra como extrahepática⁶, se presentan como múltiples lesiones (papilo-

matosis) o en forma única (solitarios), como es el caso actual. Solamente el estudio anatomopatológico puede diferenciarlo de los adenocarcinomas. Los papilomas solitarios se localizan en la mayoría de los casos en la vesícula biliar o en la ampolla de Vater y con menor frecuencia en el conducto cístico⁷.

Son el resultado del crecimiento papilar del

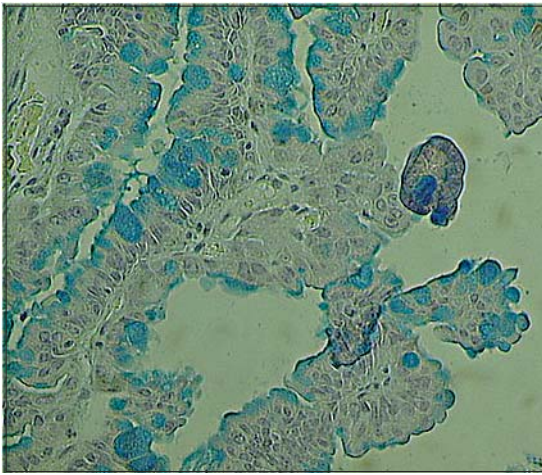


Figura 7. Tinción con azul de Alcian, demuestra las células de tipo caliciforme.

epitelio hacia el lumen de la vía biliar. Se cree que son una reacción a la injuria local, más que una verdadera neoplasia⁴. Histológicamente están compuestos de conductos no quísticos benignos y grados variables de inflamación y fibrosis⁴. Se diferencian de los adenocarcinomas por la ausencia de hiper cromasia nuclear, actividad mitótica o de invasión vascular⁴.

Los pacientes consultan por ictericia, dolor abdominal o fiebre, es raro el hallazgo en pacientes asintomáticos⁸. El diagnóstico de papiloma biliar se basa en la confirmación por imágenes del tumor en la vía biliar asociado a la dilatación difusa de la vía biliar intra y extrahepática⁸. En el caso de los adenomas papilares del conducto cístico, se observan a la CPRE como un defecto de llene tuberoso en el orificio del conducto cístico^{9,10}. El diagnóstico anatomopatológico se realiza en el postoperatorio, debido a que en pocas ocasiones se puede obtener muestra histológicas previas¹¹.

Para optimizar el diagnóstico preoperatorio se ha propuesto la CPRE como la mejor herramienta. La citología con cepillado, puede ser de utilidad en estos casos, para definir malignidad, especialmente cuando la obtención de muestras histológicas sea difícil.

La coledoscopia con endoscopios “mother & baby” o mediante coledoscopios, puede ser también útil.

La colangiografía con RM, puede mostrar la lesión y ayudar en el diagnóstico diferencial, entre litiasis y tumor, como también en la planificación de la cirugía, si esta es necesaria.

Por su parte, la medición de p53 se ha utilizado para determinar el potencial de malignidad de los adenomas, principalmente con displasia de alto grado¹².

Una de las alternativas quirúrgicas que se ha planteado para los adenomas papilares de conducto cístico es la colecistectomía asociada a la resección del conducto biliar comprometido y una linfadenectomía regional, seguida de una hepaticoyeyunoanastomosis en Y de Roux, considerando la posible transformación maligna de la lesión adenomatosa, como ocurre en el proceso de displasia, metaplasia y carcinoma en la vesícula¹³, sin embargo, no está establecido el tratamiento del adenoma según los grados de atipia o invasión mural, por lo que sería un aspecto controversial. Particularmente, algunos autores han planteado que la displasia severa (alto grado), debe ser considerada un adenocarcinoma bien diferenciado, siendo en estos casos el estudio con p53 el mejor método para determinar el potencial maligno de dichas células¹⁴.

Conclusión

Los adenomas de la vía biliar extrahepática, son poco frecuentes, se presentan en la mayoría de los casos como un síndrome icterico, debido a la obstrucción de la vía biliar. La CPRE, biopsias y cepillado citológico parecen ser las herramientas diagnósticas más útiles, sin embargo, existe controversia con respecto al tratamiento óptimo de estos pacientes. Esto es aún más relevante en pacientes añosos como el caso presentado.

Resumen

El adenoma papilar de la vía biliar es un tumor benigno infrecuente que se presenta habitualmente como un cuadro de ictericia obstructiva y dolor abdominal. La mayoría se localiza en la vía biliar distal común y en raras ocasiones en el conducto cístico.

Es probablemente el resultado de un proceso de inflamación crónica y de cambios genéticos que puede progresar desde adenoma a adenocarcinoma. Se reporta un caso de una paciente de 88 años que presentó dolor abdominal epigástrico y de hipocondrio derecho. La Colangiopancreatografía endoscópica retrograda demostró una lesión polipoidea originada en el conducto cístico con extensión a colédoco. Se realizó resección parcial y biopsia. El estudio anatomopatológico diferido confirmó un adenoma papilar de la vía biliar. Se presenta una revisión de la literatura.

Palabras claves: Adenoma papilar, vía biliar.

Bibliografía

- 1.- Satoh H, Hirano T, Ogawa Y, et al. Adenoma arising from the cystic duct and extending to the confluence of the extrahepatic biliary tract. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* 1999; 6: 186-189.
- 2.- Burhans R, Myers R T. Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts. *Am Surg* 1971; 37: 161-166.
- 3.- Kunisaki S M, Hertl M, Bodner B E, et al. Mirizzi syndrome secondary to an adenoma of the cystic duct. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* 2005; 12: 159-162.
- 4.- Allaire G S, Rabin L, Ishak K G, et al. Bile duct adenoma. A study of 152 cases. *Am J Surg Pathol* 1988; 12: 708-715.
- 5.- Fletcher N D, Wise P E, Sharp K W. Common bile duct papillary adenoma causing obstructive jaundice: case report and review of the literature. *Am Surg*. 2004; 70: 448-452.
- 6.- Holtkamp W, Reis H E. Papillomatosis of the bile ducts: papilloma-carcinoma sequence. *Am J Gastroenterol* 1994; 89: 2253-2255.
- 7.- Loh A, Kamar S, Dickson G H. Solitary benign papilloma (papillary adenoma) of the cystic duct: a rare cause of biliary colic. *Br J Clin Pract* 1994; 48: 167-168.
- 8.- Aoki S, Okayama Y, Kitajima Y, et al. Intrahepatic biliary papilloma morphologically similar to biliary cystadenoma. *J Gastroenterol Hepatol* 2005; 20: 321-324.
- 9.- Yamaguchi K, Nishihara K, Tsuneyoshi M. Carcinoma of the cystic duct. *J Surg Oncol* 1991; 48: 282-286.
- 10.- Shibata Y, Toyoda S. Carcinoma of the cystic duct protruding into the common bile duct: report of a case. *Surg Today* 1995; 25: 1050-1053.
- 11.- Lam C M, Yuen S T, Yuen W K. Biliary papillomatosis. *Br J Surg* 1996; 83: 1712-1715.
- 12.- Lou H Y, Chang C C, Chen S H, et al. Acute cholangitis secondary to a common bile duct adenoma. *Hepato-gastroenterology* 2003; 50: 949-951.
- 13.- Kozuka S, Tsubone N, Yasui A, et al. Relation of adenoma to carcinoma in the gallbladder. *Cancer*. 1982; 50: 2226-2234.
- 14.- Wee A, Teh M, Raju G C. Clinical importance of p53 protein in gall bladder carcinoma and its precursor lesions. *J Clin Pathol* 1994;47 (5): 453-456.

Correspondencia a:
Dr. Marco Ceroni Villanelo
E-mail: marco.ceroni@gmail.com