

QUISTE ESPLÉNICO GIGANTE CON ELEVACIÓN DEL CA 19-9

REPORTE DE UN CASO

JOANNE L SALAS RODRÍGUEZ, RENATA SÁNCHEZ M, ALEXIS SÁNCHEZ ISMAYEL, AQUILES SIVERIO, HUMBERTO J CHACÓN V, GUSTAVO BENÍTEZ

SERVICIO DE CIRUGÍA III HOSPITAL UNIVERSITARIO DE CARACAS FACULTAD DE MEDICINA. UCV, CARACAS, VENEZUELA

RESUMEN

Los quistes esplénicos verdaderos constituyen una rareza, es por ello que presentamos el caso de una paciente de 21 años de edad tratada por un quiste esplénico gigante (30 cm) con elevación del Ca 19-9 (1670U/mL) a quien se le realizó esplenectomía con evolución satisfactoria y sin complicaciones. La biopsia definitiva reportó quiste esplénico verdadero, siendo estas lesiones poco frecuentes, más aun cuando cursan con elevación del Ca 19-9, encontramos que se han publicado en la literatura consultada alrededor de 30 casos.

PALABRAS CLAVE: Quiste, esplénico, esplenectomía, Ca 19-9.

SUMMARY

The true cyst spleen are a poor known pathology, for these reason we report the case of a 21-year-old woman with a giant true spleen cyst (30 cm) with a high CA 19-9 serum level (1670 U/mL). The patient underwent splenectomy without complications and she has a successful postoperative course. The histopathological diagnosis was a true splenic cyst being these lesions very rare; approximately 30 cases of benign true splenic cysts with a high CA 19-9 serum level have been published in the literature.

KEY WORDS: Spleen cysts, splenectomy, Ca 19-9

Recibido: 03/05/2007 Revisado: 10/05/2007

— Aceptado para publicación: 14/04/2007 —

Correspondencia: Dra. Joanne L. Salas Rodríguez.

Hospital Universitario de Caracas.

Servicio de Cirugía III. Piso 5.

Email: jjsalas@cantv.net. Tel: (0212) 6067280- 6067841

INTRODUCCIÓN

Las lesiones quísticas del bazo son poco frecuentes, aunque el amplio uso del ultrasonido así como el manejo conservador del trauma esplénico han aumentado su incidencia⁽¹⁾, presentándose con frecuencia como un hallazgo incidental en la exploración de pacientes asintomáticos⁽²⁾.

Se clasifican de forma variable, según su etiología, en parasitarias y no parasitarias y éstas últimas según la presencia o no de epitelio de revestimiento, se dividen en verdaderos y falsos⁽³⁻⁵⁾ (Cuadro 1) y más recientemente se ha sugerido clasificarlos según su tamaño, número, localización y relación con el pedículo vascular en 5 tipos diferentes⁽⁶⁾ (Figura 1).

Algunos quistes esplénicos tales como los parasitarios y los quistes falsos o secundarios, tienen una patogénesis conocida; en los primarios o verdaderos se plantean algunas hipótesis para explicar su origen. Algunos autores piensan que su origen primitivo es mesodérmico, con posterior metaplasia de sus células de revestimiento⁽⁷⁾. También se ha postulado que representan inclusiones embrionarias de células epiteliales a partir de estructuras adyacentes o metaplasia de células primitivas

Cuadro 1. Clasificación de los quistes esplénicos no parasitarios⁽³⁻⁵⁾.

Quistes verdaderos

Quistes congénitos simples

Quistes epidermoides

Quistes dermoides.

Pseudoquistes (Falsos).

Quiste postraumático (sero-hemorrágico).

Quiste degenerativo (pos infarto).

Quiste inflamatorio (tuberculosis, necrosis, peri esplenitis).

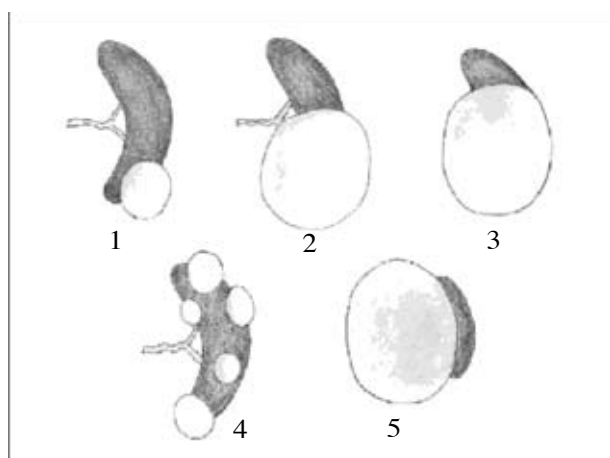


Figura 1. Clasificación de los quistes esplénicos según su localización⁽⁶⁾.

de la cavidad celómica. Bürrig en 1988⁽⁸⁾, proporciona evidencias de que estas lesiones son el resultado de fenómenos traumáticos con posterior proliferación mesotelial, seguidamente el mesotelio sufriría metaplasia escamosa focal, debido a una irritación crónica.

Debido a su poca frecuencia, no existe un tratamiento estándar sino que existen opciones que van desde la tradicional esplenectomía total hasta varios procedimientos que conservan parcialmente el bazo; igualmente la vía de abordaje laparoscópico versus abierto está aún por definirse⁽⁵⁾.

En este trabajo presentamos el caso de una

paciente con quiste esplénico verdadero simple con elevación marcada del Ca19-9 así como la revisión de la literatura publicada acerca de esta patología poco frecuente.

CASO CLÍNICO

Paciente femenino de 21 años de edad quien inicia enfermedad actual 4 meses antes del ingreso caracterizado por dolor abdominal en cuadrante superior izquierdo, punzante no irradiado que mejora parcialmente con analgésicos, acompañado de aumento de volumen progresivo que ocupa el hemiabdomen izquierdo y parte del derecho, concomitantemente hiporexia y pérdida de peso motivo por el cual consulta decidiéndose su ingreso.

Dentro de los antecedentes refiere emponzoñamiento ofídico a los 8 años de edad y niega traumatismos u otros antecedentes de importancia.

Al examen físico se aprecia un abdomen asimétrico a expensas de una masa de aproximadamente 30 cm de diámetro, de consistencia dura, no dolorosa, que se desplaza con los movimientos respiratorios y se extiende desde el hipocondrio izquierdo hasta el flanco izquierdo, epigastrio y región periumbilical. El resto del examen físico sin alteraciones. Se le solicitan hematología completa y química sanguínea que resultan sin alteraciones. Se

le solicita Ca 19-9 con valores de 1670 U/mL (normal 0-27U/mL). El CEA y Ca125 estaban normales y la serología para *Echinococcus granulosus* fue negativa.

Se solicita tomografía axial computarizada abdominopélvica con doble contraste evidenciando una imagen de densidad líquida de 28 cm aproximadamente que desplaza el estómago, el riñón y el colon izquierdo hacia el lado derecho, se visualiza el páncreas normal e impresiona una pequeña porción del polo inferior del bazo desplazada por la lesión; no se evidenciaron otras lesiones intra-abdominales. (Figura 2).

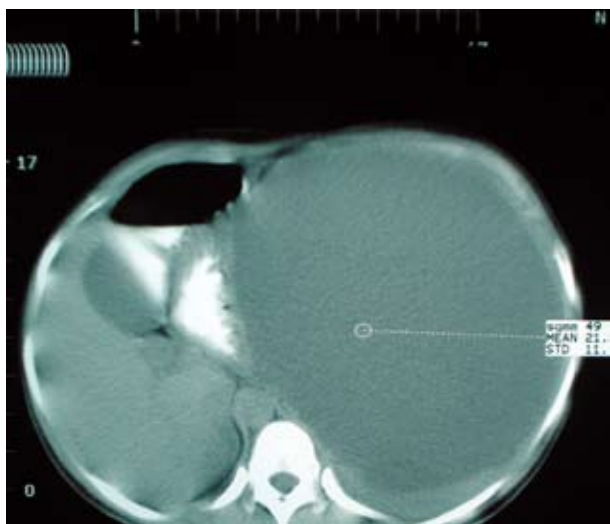


Figura 2. Tomografía axial computarizada evidenciando las características de la lesión así como el desplazamiento del estómago hacia la derecha.

En vista de los hallazgos se decide realizar una laparotomía exploradora evidenciando una lesión predominantemente quística de aproximadamente 30 cm de diámetro que involucraba casi la totalidad del parénquima esplénico adherida a la cúpula diafragmática

izquierda, con desplazamiento del riñón izquierdo y del colon izquierdo; no se detectaron otras patologías. Se realizó esplenectomía total previo control vascular de arteria y vena esplénica sobre el borde superior del páncreas, sin complicaciones. (Figura 3 y 4).

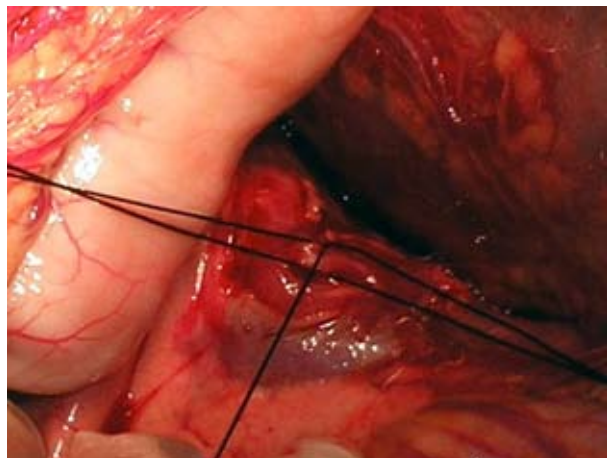


Figura 3. Ligadura selectiva de la arteria esplénica.



Figura 4. Lesión quística gigante del bazo, véase las dimensiones en relación con la incisión abdominal así como el pequeño remanente esplénico en la porción caudal de la misma.

El diagnóstico histopatológico concluyó quiste simple verdadero evidenciado por la presencia de trabéculas macroscópicamente y la confirmación de epitelio de revestimiento en el estudio microscópico. (Figura 5 y 6).

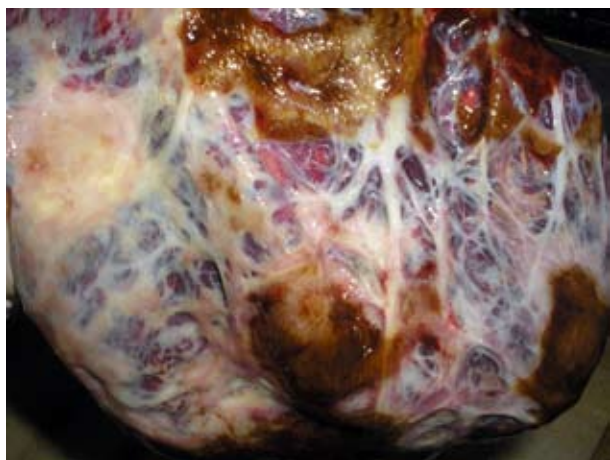


Figura 5. Aspecto macroscópico trabecular de la lesión a su apertura.

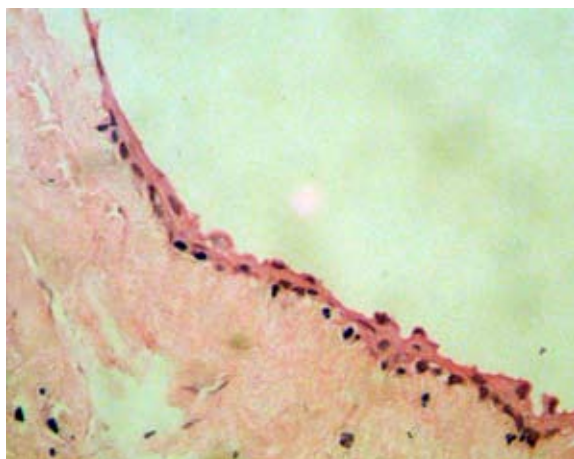


Figura 6. Microfotografía con hematoxilina eosina de la lesión donde se aprecia el epitelio de revestimiento. (100 x).

Se administró vacuna antineumocócica en el posoperatorio inmediato con evolución posoperatoria satisfactoria, egresando en buenas condiciones.

DISCUSIÓN

Los quistes esplénicos son lesiones poco frecuentes del bazo, en todo el mundo la causa más común es el origen parasitario, especialmente en países subdesarrollados, seguido por lesiones postraumáticas^(1,2). Los quistes esplénicos pueden ser primarios (verdaderos) o secundarios (falsos), dependiendo de la presencia o ausencia de epitelio de revestimiento en el interior de la pared^(3,4). Estas lesiones pueden ser uni o multiloculadas y pueden localizarse subcapsulares, intraparenquimatosas o perihiliares⁽⁵⁾.

La mayoría de los quistes verdaderos son de origen epitelial y tienen inclusiones embriológicas de células epiteliales de estructuras adyacentes^(9,10).

El marcador tumoral Ca19-9 es característico del adenocarcinoma pancreático, sin embargo, células epiteliales tanto normales como tumorales pueden producirlo. Niveles elevados de Ca 19-9 pueden acompañar enfermedades gastrointestinales benignas como cirrosis hepática, colangitis aguda, ictericia obstructiva y condiciones pancreáticas benignas⁽¹¹⁾.

El primer caso publicado de elevación del Ca19-9 acompañando a un tumor esplénico fue publicado en 1994 por Terada y col.⁽¹²⁾ y desde entonces cerca de 30 casos han sido publicados en la literatura con similares características⁽¹³⁻²⁴⁾, especialmente relacionados con quistes de origen epitelial.

Las lesiones quísticas esplénicas pequeñas, son asintomáticas. Los síntomas se relacionan con el tamaño de las lesiones y pueden manifestarse desde dolor vago hasta la presencia de una masa palpable en el cuadrante superior izquierdo con o sin síntomas secundarios a la compresión de estructuras vecinas^(25,26). Las posibles complicaciones son la ruptura espontánea del quiste con peritonitis química o sangrado, la formación de abscesos, el hiperesplenismo e incluso hipertensión portal^(1,2).

La indicación para el tratamiento depende principalmente de los síntomas del paciente y de las dimensiones del quiste. Se considera que lesiones mayores de 5 cm deben ser tratadas debido al riesgo de complicaciones. El tratamiento tiene como objetivos la eliminación del quiste, para evitar sus complicaciones así como la posibilidad de recurrencia. Por ello las medidas de drenaje y el uso de agentes esclerosantes no están recomendados aún por su falla a largo plazo^(27,28).

La cirugía es el único tratamiento efectivo para este tipo de lesiones⁽⁶⁾. Sin embargo, además de la esplenectomía abierta, la esplenectomía laparoscópica, así como la posibilidad de realizar escisión del quiste o esplenectomías parciales son alternativas viables para el tratamiento de los tumores quísticos esplénicos⁽²⁹⁻³¹⁾. El bazo tiene un riego sanguíneo segmentario y una pequeña circulación colateral entre dichos segmentos. Por estas características es posible la realización de esplenectomías segmentarias sin mucha pérdida sanguínea, especialmente en manos experimentadas y gracias al desarrollo de nuevas técnicas quirúrgicas como esplenorrafia utilizando mallas absorbibles, hemostasia con adhesivos de fibrina, coagulación con haz de argón y el uso del engrapado quirúrgico^(5,28-32).

Al menos el 25 % del parénquima esplénico debe conservarse para mantener la función del

órgano⁽⁵⁾.

La decisión de realizar la esplenectomía total o parcial va a depender de la afectación del parénquima y del hilio esplénico, la clasificación por severidad propuesta por Morgenstern⁽⁶⁾ para las lesiones quísticas no parasitarias del bazo nos permite establecer conductas terapéuticas distintas según cada tipo (Figura 1).

Las lesiones tipo 1 corresponden a lesiones con la mayor parte del parénquima intacto, la remoción del quiste es factible y pueden conservarse una parte sustancial del hilio y del parénquima esplénico. Las lesiones del tipo 2, donde se afecta parcialmente el hilio esplénico, requieren ligadura de parte del hilio esplénico así como la resección del parénquima afectado garantizando la irrigación del resto del órgano. Las lesiones tipo 3 corresponden a grandes lesiones con una irrigación remanente polar pequeña suplida solamente por los vasos cortos; si puede respectarse dicha irrigación remanente pueden tratarse realizando una esplenectomía parcial. Las lesiones tipo 4 y 5 se refieren a múltiples lesiones quísticas y aquellas que afectan de forma considerable el hilio esplénico, respectivamente, por lo que su tratamiento consiste en esplenectomía total, la lesión que se describe en este trabajo corresponde a una lesión tipo 5 por lo que el tratamiento fue la esplenectomía total.

REFERENCIAS

1. Klee FE, Oswald BR, Wysocki S. Spleen cyst: A classical "incidental finding". *Zentralb Chir.* 1996;121:805-816.
2. Pachter HL, Hofstetter SR, Elkowitz A, Harris L, Liang HG. Traumatic cysts of the spleen. The role of cystectomy and splenic preservation: Experience with seven consecutive patients. *J Trauma.* 1993;35:430-436.
3. Martin JW. Congenital splenic cysts. *Am J Surg.* 1958;96(2):302-308.
4. Williams RJ, Glazer G. Spleen cysts: Changes in diagnosis, treatment and etiological concepts. *Ann R Coll Surg Engl.* 1993;75(2):87-89.
5. Gianom D, Wildisen A, Hotza T, Gotia F. Open and laparoscopic treatment, for non parasitic spleen cysts. *Dig Surg.* 2003;20:74-78.
6. Morgenstern L. Non parasitic spleen cysts: Pathogenesis, classification, and treatment. *J Am Coll Surg.* 2002;194:306-314.
7. Hernández-Siverio N, Barranco A, Pérez Palma J, Herrera I, Díaz-Flores L. Quiste esplénico epidermoide. Estado actual del problema. *Cir Pediatr.* 2004;17:159-163.
8. Bürrig KF. True epithelial cyst of the spleen. *Am J*

- Surg Pathol. 1988;12:275-281.
9. Trompetas V, Panagopoulos E, Priovolou-Papaevangelou M, Ramantanis G. Giant benign true cyst of the spleen with high serum level of CA 19-9. *Eur J Gastroenterol Hepatol.* 2002;14(1):85-88.
 10. Madia C, Lumachi F, Veroux M, Fiamingo P, Gringeri E, Brolese A, et al. Giant spleen epithelial cyst with elevated serum markers CEA and CA 19-9 levels: An incidental association? *Anticancer Res.* 2003;23(1B):773-776.
 11. Oswald BR, Klee FE, Wysocki S. The reliability of the highly elevated CA 19-9 levels. *Dis Markers.* 1993;11(5-6):275-278.
 12. Terada T, Yasoshima M, Yoshimitsu Y, Nakanuma Y. Carbohydrate antigen 19-9 producing giant epithelial cyst of the spleen in a young woman. *J Clin Gastroenterol.* 1994;18(1):57-61.
 13. Lieto E, Castellano P, Ferraraccio F, Orditura M, De Vita F, Romano C, et al. Normal interleukin-10 serum level opposed to high serum levels of carbohydrate antigen 19-9 and cancer antigens 125 and 50 in a case of true splenic cyst. *Arch Med Res.* 2003;34(2):145-148. Retraction in: *Arch Med Res.* 2003;34(5):444-448.
 14. Galizia G, Lieto E, Ferraraccio F, Castellano P, De Vita F, Orditura M, et al. A true splenic cyst producing carbohydrate antigen 19-9 and cancer antigens 50 and 125, but not interleukin 10. *Dig Surg.* 2003;20(1):71-74.
 15. Soudack M, Ben-Nun A, Toledano C. Elevated carbohydrate antigen 19-9 in patients with true (epithelial) splenic cysts- rare or undiscovered? *Can J Gastroenterol.* 2001;15(2):125-126.
 16. van Lacum MW, Hessels RA, Kremer GD, Jaspers CA. A splenic cyst and a high serum CA 19-9: A case report. *Eur J Intern Med.* 2000;11(2):104-107.
 17. Ishibashi R, Sakai T, Yamashita Y, Maekawa T, Hideshima T, Shirakusa T. Benign epithelial cyst of the spleen with a high production of carbohydrate antigen 19-9. *Int Surg.* 1999;84(2):151-154.
 18. Sardi A, Ojeda HF, King D Jr. Laparoscopic resection of a benign true cyst of the spleen with the harmonic scalpel producing high levels of CA 19-9 and carcinoembryonic antigen. *Am Surg.* 1998;64(12):1149-1154.
 19. Higaki K, Jimi A, Watanabe J, Kusaba A, Kojiro M, Jimi A, et al. Epidermoid cyst of the spleen with CA19-9 or carcinoembryonic antigen productions: Report of three cases. *Am J Surg Pathol.* 1998;22(6):704-708.
 20. Walz MK, Metz KA, Sastry M, Eigler FW, Leder LD. Benign mesothelial splenic cyst may cause high serum concentration of CA 19-9. *Eur J Surg.* 1994;160(6-7):389-391.
 21. Ito S, Gejyo F. Elevation of serum CA19-9 levels in benign diseases. *Intern Med.* 1999;38(11):840-841.
 22. Hashimoto T, Sugino T, Fukuda T, Hoshi N, Ogura G, Watanabe K, et al. Multiple epithelial cysts of the spleen and on the splenic capsule, and high serum levels of CA19-9, CA125 and soluble IL-2 receptor. *Pathol Int.* 2004;54(5):349-354.
 23. Lopez JB, Royan GP, Lakhwani MN, Mahadaven M, Timor J. CA 72-4 compared with CEA and CA 19-9 as a marker of some gastrointestinal malignancies. *Int J Biol Markers.* 1999;14:172-177.
 24. McLaughlin R, O'Hanlon D, Kerin M, Kenny P, Grimes H, Given HF. Are elevated levels of the tumour marker CA19-9 of any clinical significance? An evaluation. *Ir J Med Sci.* 1999;168:124-126.
 25. de Melo VA, Alves Junior A, Andrade LC, Aragao JF, Rosa JE. Splenic cyst: Review of the literature and report of 2 cases. *Rev Hosp Clin Fac Med Sao Paulo.* 1995;50:289-293.
 26. Trombetta V, Maloisel F, Becmeur F, Chenard MP, Meyer C. True benign non-parasitic cysts of the spleen: From diagnosis to treatment. A proposed of 5 new cases. *J Chir (Paris).* 1995;132:467-471.
 27. Seshadri PA, Poulin EC, Mamazza J, Schlachta CM. Needleoscopic decapsulation of a splenic epithelial cyst. *Can J Surg.* 2000;43:303-305.
 28. Rosin D, Brasesco O, Rosenthal RJ. Laparoscopic splenectomy: New techniques and indications. *Chirurg.* 2001;72:368-377.
 29. Wolters U, Keller HW, Lorenz R, Pichlmaier H. Splenic cysts: Indications for surgery and surgical procedures. *Langenbecks Arch Chir.* 1990;375:231-234.
 30. Brown MF, Ross AJ, Bishop HC, Schnauffer L, Ziegler MM, Holcomb GW. Partial splenectomy: The preferred alternative for the treatment of splenic cysts. *J Pediatr Surg.* 1989;24:694-696.
 31. Wit J, Flegel A, Golla S, Mau H. Surgical therapy of monstrous splenic cysts in childhood. *Chir Gastroenterol.* 2001;17:6-10.
 32. Sobrado CW, Mackdisse F, da Rocha JRM, Mester M, Nahas SC, Habr- Gama A. True splenic cyst treated with video laparoscopy: A case report and review of the literature. *Rev Hosp Clin Fac Med Sao Paulo.* 1998;53:260-262.