PRESENTACIÓN DE CASO

Quiste de duplicación gástrico en paciente adulto: Reporte de caso y revisión de la literatura

Gastric duplication cyst in an adult patient: Case report and literature review

Juan Carlos Díaz¹, Uriel Cardona-Núñez², Ana María Sanz³, Armando Cortés³,
Mauricio Zuluaga⁴

- 1 Médico, Departamento de Servicios Ambulatorios, Hospital Universitario del Valle, Cali, Colombia.
- 2 Médico, especialista en Cirugía general, subespecialista en Cirugía oncológica, Departamento de Cirugía Oncológica, Hospital Universitario del Valle, Cali, Colombia.
- 3 Médico, especialista en Patología, Universidad del Valle, Cali, Colombia.
- 4 Médico, especialista en Cirugía General y Mínimamente Invasiva; jefe, Sección de Cirugía General, Universidad del Valle; jefe, Unidad de Cirugía Bariátrica y de Pared Abdominal, Hospital Universitario del Valle, Cali, Colombia.

Resumen

Introducción. Los quistes gástricos de duplicación son malformaciones congénitas muy infrecuentes del tracto gastrointestinal. Se definen como una lesión quística tapizada por epitelio gastrointestinal que comparte una capa de músculo liso con la pared gástrica. Se han propuesto diferentes teorías sobre su patogénesis, sin embargo, los eventos embriológicos que conducen a la malformación no han logrado ser dilucidados. Debido a su localización y presentación clínica, el diagnóstico se realiza con mayor frecuencia durante los primeros años de vida y existen pocos casos reportados en adultos, en quienes el hallazgo suele ser incidental.

Caso clínico. Se presenta el caso de una mujer de 65 años quien consultó por dolor abdominal crónico y síntomas digestivos inespecíficos. Por medio de Tomografía Axial Computarizada se evidenció una lesión quística en contacto con el páncreas y la pared gástrica. Se realizó exploración quirúrgica que, junto con los hallazgos histopatológicos, confirmó el diagnóstico de quiste de duplicación gástrico.

Discusión. Los quistes de duplicación gástrica son anomalías excepcionales que se localizan más frecuentemente en la curvatura mayor. Su tratamiento es quirúrgico y la confirmación del diagnóstico se realiza mediante la histología.

Palabras clave: quiste; duplicación; tracto gastrointestinal; adulto; quirúrgico; histología.

Fecha de recibido: 01/09/2020 - Fecha de aceptación: 22/11/2020 - Fecha de publicación en línea: 23/07/2021

Correspondencia: Juan Carlos Díaz, Calle 5a # 36 – 08, Cali, Colombia. Teléfono: (572) 6206000

Correo electrónico: juan.cdo@gmail.com

Citar como: Díaz JC, Cardona-Núñez U, Sanz AM, Cortés A, Zuluaga M. Quiste de duplicación gástrico en paciente adulto: Reporte de caso y revisión de la literatura. Rev Colomb Cir. 2021;36:719-25. <https://doi.org/10.30944/20117582.756>

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>

Abstract

Introduction. Gastric duplication cysts are very rare congenital malformations of the gastrointestinal tract. They are defined as a cystic lesion lined by gastrointestinal epithelium that shares a layer of smooth muscle with the gastric wall. Different theories have been proposed about its pathogenesis, however, the embryological events that lead to the malformation have not been elucidated. Due to its location and clinical presentation, the diagnosis is made more frequently during the first years of life and there are few cases reported in adults, in whom the finding is usually incidental.

Clinical case. We present the case of a 65-year-old woman who consulted for chronic abdominal pain and nonspecific digestive symptoms. A CT scan evidenced a cystic lesion in contact with the pancreas and the gastric wall. A surgical exploration was performed which, along with the histopathological findings, confirmed the diagnosis of a gastric duplication cyst.

Discussion. Gastric duplication cysts are exceptional anomalies that are more frequently located in the greater curvature. Its treatment is surgical and the confirmation of the diagnosis is made by histology.

Keywords: cyst; duplication; gastrointestinal tract; surgical; histology.

Introducción

Los quistes de duplicación (QD) son malformaciones congénitas raras, que se definen como una lesión quística tapizada por epitelio gástrico o intestinal, con una capa de músculo liso entre su pared y la del segmento del tubo digestivo afectado^{1,2}. Su incidencia se estima en 1 por cada 4500 nacidos. Aunque se pueden originar en cualquier segmento del tracto gastrointestinal, se presentan con mayor frecuencia en el intestino delgado y en el estómago, en un 4-20 % de los casos a nivel de la curvatura mayor³.

Existen muchas teorías relacionadas con su posible etiología, incluyendo la formación de divertículos entéricos embriológicos, la separación incompleta de las placas notocordales y la fusión entre pliegues longitudinales⁴. La mayoría de los QD gástricos se diagnostican durante la infancia y existen pocos reportes de esta patología en adultos mayores, en quienes su hallazgo es usualmente incidental y el diagnóstico representa un reto debido a la ambigüedad de los síntomas y a la amplia variedad de diagnósticos diferenciales^{5,6}.

Se presenta el caso de una mujer adulta mayor, con diagnóstico de quiste de duplicación

gástrico, confirmado mediante el estudio histopatológico.

Caso clínico

Mujer de 65 años, quien consultó al Hospital Universitario del Valle, Cali, Colombia, por un cuadro clínico de tres años de evolución de dolor abdominal localizado en epigastrio e hipocondrio derecho, asociado con deposiciones líquidas intermitentes y malestar general, síntomas exacerbados con la ingesta de alimentos, e incrementados en frecuencia e intensidad durante el último mes. Como antecedentes de importancia refirió hipertensión arterial en manejo con losartán y propranolol, síndrome de intestino irritable y dispepsia, en tratamiento con trimebutina y sucralfato, respectivamente. Como datos relevantes del examen físico se identificó sobrepeso, abundante panículo adiposo y masa epigástrica dolorosa a la palpación. Los estudios de laboratorio se encontraban dentro de parámetros normales.

Se realizó una ecografía de abdomen total que informó una imagen quística de 8 x 7 cm, en íntimo contacto con la cola del páncreas. Posteriormente una tomografía computarizada de abdomen con contraste reportó una lesión hipodensa de aspecto

quístico, de 86,6 x 78,5 mm, en contacto con la curvatura mayor del estómago, el cuerpo y la cola del páncreas, con paredes irregularmente engrosadas y calcificaciones periféricas aisladas en su interior. Como primera posibilidad se sugirió un tumor del estroma gastrointestinal (GIST, por sus siglas en inglés) (figuras 1 y 2). La endoscopia de vías digestivas altas diagnosticó una gastropatía antrocorporal no erosiva sin hallazgos patológicos adicionales.

Debido a los hallazgos descritos, la paciente fue programada por cirugía oncológica para resección laparoscópica. Se utilizó la posición francesa y se insertaron trocares de 12 mm a nivel umbilical y paraumbilical derecho, trocares de 5 mm paraumbilical izquierdo, hipocondrio derecho e hipocondrio izquierdo. Se utilizó neumoinflación de 12 mm/Hg. Se encontró una lesión pediculada dependiente de la curvatura mayor a nivel del cuerpo gástrico (figura 3) y se decidió realizar una gastrectomía vertical con endograpadora y bujía de calibración de 34 Fr para evitar la estenosis. Se preservaron los bordes libres de lesión.

El resultado de histopatología informó un espécimen conformado por un quiste de 9,5 cm de diámetro y 321 g. de peso, con superficie de color pardo claro, lisa y vascularizada. La pared de la lesión se encontraba rodeada por una capa de músculo adherida a un fragmento de la pared gástrica. Al corte se reveló una cavidad quística uniloculada que contenía líquido seromucinoso de color bronce y calcificaciones múltiples en su pared interna, sin comunicación directa con la mucosa gástrica (figura 4). En la evaluación microscópica, la pared quística se encontraba unida a la pared gástrica por medio de una capa de músculo liso, y tenía la superficie interna tapizada por mucosa gástrica con escasas glándulas y foveolas, alternadas con una capa simple de epitelio cuboidal a cilíndrico con inmunorreactividad para CK AE1/AE3 y CK7 en los estudios de inmunohistoquímica (figura 5).

La paciente se recuperó de forma adecuada y se realizó seguimiento durante un año mediante tomografías de abdomen, sin presentar recurrencia o complicaciones relacionadas con la cirugía.

Figura 1. Corte axial de tomografía computarizada contrastada de abdomen (plano transverso). Se señala la lesión hipodensa de aspecto quístico de 86.6 mm x 78.5 mm

Figura 2. Corte coronal de la tomografía computarizada de abdomen donde se señala la lesión hipodensa de aspecto quístico.

Figura 3. Hallazgos intraoperatorios: curvatura menor del estómago (a) en cuyo espesor de la pared (b) se identifica una lesión quística (c) con la que comparten una misma irrigación sanguínea.

Discusión

Los quistes de duplicación se definen como lesiones quísticas tapizadas en su interior por epitelio intestinal, unidas por una capa de músculo liso a la capa muscular propia de cualquier segmento del tracto gastrointestinal⁷. Son malformaciones infrecuentes que varían en forma, tamaño y pueden comprometer cualquier segmento del tracto gastrointestinal, afectando con mayor frecuencia el intestino delgado a nivel del íleon, yeyuno y, en menor proporción, el estómago^{1,6,8}.

Figura 4. Hallazgos macroscópicos en espécimen de resección: A. Cara externa de lesión quística unida a borde de resección de pared gástrica (a). B. Cara interna del espécimen de resección con fragmentos de mucosa gástrica (b) y cavidad interna de lesión quística no comunicante (c).

Existe controversia respecto al origen embriológico de estas malformaciones. Se ha planteado que son producto de una falla en la recanalización del tubo digestivo primitivo antes de la diferenciación del epitelio de superficie, por lo cual reciben su nombre dependiendo del fragmento del tracto gastrointestinal con el cual estén asociados⁵. Otras teorías sobre su etiopatogenia proponen la persistencia de una vacuola formada en la fase sólida de la embriogénesis intestinal o la persistencia de un divertículo embrionario, fallas en la fusión y la recanalización de los pliegues longitudinales que permiten la formación de puentes epiteliales y fracaso en el desarrollo normal de la notocorda y el endodermo. Hasta la fecha, los mecanismos etiopatológicos no se han dilucidado^{9,10}.

Los QD gástricos representan un 4 % a 20 % de todas las duplicaciones intestinales, su localización más frecuente es a nivel de la curvatura mayor (95 % de los casos), seguidos por la pared posterior^{8,11}.

Los criterios diagnósticos fueron descritos en 1959 por Rowling et al. e incluyen la continuidad entre la pared gástrica y la quística, unidas por una capa común de músculo liso al alrededor del quiste, la irrigación de la lesión por una arteria gástrica y la presencia de epitelio de mucosa gástrica o intestinal tapizando la lesión¹². Estas lesiones tienen una configuración quística o tubular y pueden o no comunicarse con la luz gástrica. Los criterios mencionados previamente fueron confir-

Figura 5. Hallazgos microscópicos: A. Epitelio de pared quística (a) unido por capa de músculo liso (b) a mucosa gástrica (c). B. Epitelios de pared quística y gástrica positivos para CK AE1/AE3 por inmunohistoquímica. C. Mucosa intestinal tapizando la cara interna de la lesión quística (d).

mados histopatológicamente en nuestra paciente, en quien la lesión de configuración quística no fue comunicante y tenía una superficie epitelial completamente independiente de la mucosa gástrica.

Debido a su localización, tamaño y efecto compresivo, los QD gástricos son diagnosticados con mayor frecuencia durante la infancia, debido a la presencia de síntomas y signos más evidentes⁶. El diagnóstico en adultos generalmente se hace de forma incidental por tomografía o endosonografía con confirmación histológica en los especímenes resecados^{13,14}. El diagnóstico es difícil debido a la heterogeneidad en la presentación clínica y la posibilidad de diagnósticos diferenciales más frecuentes, como los tumores neuroendocrinos, GIST, páncreas ectópico y neoplasias malignas^{15,16}. Los pacientes adultos con este diagnóstico suelen ser asintomáticos o presentar síntomas inespecíficos y crónicos, como los referidos por esta paciente, quien consultó por dolor abdominal y diarrea. El diagnóstico en la edad adulta generalmente requiere de una alta sospecha diagnóstica¹⁷.

En la paciente presentada, de acuerdo con los hallazgos ecográficos iniciales, se realizó una tomografía computarizada de abdomen, para caracterizar mejor la lesión, con la presunción de un tumor del estroma gastrointestinal versus una neoplasia maligna de origen epitelial como diagnóstico diferencial. En relación con el diagnóstico, la literatura reporta mayor rendimiento de métodos como biopsia por aspiración con aguja fina guiada por endoscopia o endosonografía, y la tomografía por emisión de positrones (PET-CT), en comparación con la tomografía computarizada o la resonancia magnética nuclear^{13,18,19}. En este caso no se consideró la realización de PET-CT o la biopsia por endosonografía debido a que estas opciones no están disponibles en nuestro medio, no existe evidencia que apoye su uso, su costo es elevado y no afectaba la decisión del manejo quirúrgico.

Se han reportado múltiples procedimientos para el tratamiento de los QD gástricos incluyendo la enucleación, cistogastrostomía y resección endoscópica²⁰. Aunque no existe un algoritmo o guía de manejo específica, se recomienda la resección completa en pacientes sintomáticos y en asintomáticos con riesgo de complicaciones y de malignidad

originadas en el epitelio de revestimiento de la lesión, como se ha reportado previamente^{4,21}. La decisión del tratamiento quirúrgico en el caso presentado quedaba suficientemente sustentada por la sintomatología de la paciente, el tamaño de la lesión y la posibilidad de que se tratara de un GIST según el estudio tomográfico.

Existen diversas técnicas quirúrgicas descritas mediante abordaje abierto o laparoscópico, como la escisión completa del quiste con resección de la pared gástrica circulante, baipás gástrico y gastrectomía parcial o total^{2,22,23}. En este caso, teniendo en cuenta que la cirugía mínimamente invasiva ha mejorado los resultados postoperatorios de las resecciones gástricas en términos de menor sangrado y menor estancia hospitalaria, sin comprometer el pronóstico oncológico, se decidió hacer un abordaje laparoscópico y una resección segmentaria más linfadenectomía radical abdominal, dado que los hallazgos endoscópicos y tomográficos sugerían como primera posibilidad un GIST.

El estudio morfológico del espécimen confirmó los criterios diagnósticos de QD gástrica mencionados previamente. No hubo evidencia de focos de displasia o atipia celular a nivel del epitelio intestinal de recubrimiento quístico. La naturaleza de los quistes de duplicación gástrica se considera benigna, sin embargo, pueden asociarse con complicaciones como sangrado, fistula y degeneración maligna. Aunque no es frecuente, existen reportes de neoplasias malignas epiteliales originadas en la mucosa de recubrimiento de la lesión como adenocarcinomas, carcinomas epidermoides y carcinomas neuroendocrinos^{3,24-26}.

Conclusión

Los quistes de duplicación son anomalías congénitas infrecuentes, que varían de forma y tamaño y se pueden localizar a cualquier nivel del tracto gastrointestinal. Los quistes de duplicación gástrica son excepcionales. Representan de un 4 % al 20 % de todas las duplicaciones intestinales, entre las cuales su localización más frecuente es a nivel de la curvatura mayor. Se desconoce su mecanismo etiopatogénico.

En la mayoría de los casos el diagnóstico se realiza en la primera infancia y tan sólo en una pequeña proporción se identifican en la edad adulta, como un hallazgo incidental en pacientes asintomáticos, o con síntomas inespecíficos. Debido a la heterogeneidad en su presentación clínica es importante realizar diagnóstico diferencial con otras entidades, principalmente con tumores neuroendocrinos y de componente quístico.

Existen diferentes herramientas para su diagnóstico, incluyendo aspiración con aguja fina guiada por endoscopia, endosonografía o PET-CT, sin embargo, su confirmación se realiza usualmente mediante los hallazgos histopatológicos. Su tratamiento está basado en la resección de la lesión con diferentes técnicas quirúrgicas, mediante abordaje abierto o laparoscópico.

Cumplimiento de normas éticas

Consentimiento informado: La paciente aceptó voluntariamente la publicación del reporte de su caso clínico, incluyendo las imágenes acompañantes, mediante consentimiento informado verbal y escrito.

Conflictos de interés: Los autores declaran 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: Juan Carlos Díaz, Uriel Cardona-Núñez, Ana María Sanz, Armando Cortés, Mauricio Zuluaga

Adquisición de datos: Juan Carlos Díaz, Uriel Cardona-Núñez, Ana María Sanz, Armando Cortés, Mauricio Zuluaga

Análisis e interpretación de datos: Juan Carlos Díaz, Uriel Cardona-Núñez, Ana María Sanz, Armando Cortés, Mauricio Zuluaga

Redacción del manuscrito: Juan Carlos Díaz, Uriel Cardona-Núñez, Ana María Sanz, Armando Cortés, Mauricio Zuluaga

Revisión crítica: Juan Carlos Díaz, Uriel Cardona-Núñez, Ana María Sanz, Armando Cortés, Mauricio Zuluaga.

Agradecimientos:

Agradecemos al Dr. Edwin Carrascal, profesor titular del Departamento de Patología de la Universidad del Valle y

del Hospital Universitario del Valle, por el acompañamiento durante el proceso de diagnóstico de la paciente y la realización de las fotografías del espécimen macroscópico.

Referencias

1. Glaser C, Kuzinkovas V, Maurer C, Glättli A, Mounton W, Baer H. A large duplication cyst of the stomach in an adult presenting as pancreatic pseudocyst. *Dig Surg.* 1998;15:703-6. <https://doi.org/10.1159/000018662>
2. Izumi H, Yoshii H, Abe R, Mukai M, Nomura E, Ito H, et al. Successful laparoscopic resection for gastric duplication cyst: a case report. *J Med Case Rep.* 2019;13:240. <https://doi.org/10.1186/s13256-019-2129-1>
3. Maheeba MA, Al Saeed M, Alshaikh S, Nabar UJ. Adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst: a case report and literature review. *Int Med Case Rep J.* 2017;10:367-72. <https://doi.org/10.2147/IMCRJ.S138616>
4. O'Donnell PL, Morrow JB, Fitzgerald TL. Adult gastric duplication cysts: A case report and review of literature. *Am Surg.* 2005;71:522-5. <https://doi.org/10.1177/000313480507100616>
5. Theodosopoulos T, Marinis A, Karapanos K, Vassilikostas G. Foregut duplication cysts of the stomach with respiratory epithelium. *World J Gastroenterol.* 2007;13:1279-81. <https://doi.org/10.3748/wjg.v13.i8.1279>
6. Prieto RG, Carvajal GD, Mahler MA, Upegui D, Borrás B. Duplicaciones de las vías digestivas. *Rev Colomb Cir.* 2018;33:198-205. <https://doi.org/10.30944/20117582.62>
7. Doepker MP, Ahmad SA. Gastric duplication cyst: a rare entity. *J Surg Case Reports.* 2016;2016:73. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjw073>
8. Singh JP, Rajdeo H, Bhuta K, Savino JA. Gastric duplication cyst: two case reports and review of the literature. *Case Rep Surg.* 2013;2013:1-4. <https://doi.org/10.1155/2013/605059>
9. Upadhyay N, Gomez D, Button MF, Verbeke CS, Menon K V. Retroperitoneal enteric duplication cyst presenting as a pancreatic cystic lesion. A case report. *J Pancreas.* 2006;7:492-5. Available from: <https://pancreas.imedpub.com/retroperitoneal-enteric-duplication-cyst-presenting-as-a-pancreatic-cystic-lesion-a-case-report.php?aid=2788>
10. Kim D-H, Kim J-S, Nam ES, Shin HS. Foregut duplication cyst of the stomach. *Pathol.* 2000;50:142-5. <https://doi.org/10.1046/j.1440-1827.2000.01008.x>
11. Christians KK, Pappas S, Pilgrim C, Tsai S, Quebbeman E. Duplicate pancreas meets gastric duplication cyst: A tale of two anomalies. *Int J Surg Case Rep.* 2013;4:735-9. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2013.05.005>
12. Rowling J. Some observations on gastric cysts. *Br J Surg.* 1959;46:441-5. <https://doi.org/10.1002/bjs.18004619904>

13. Ríos SS, Noia JL, Nallib IA, León AL, Pérez-Quintela BV, García JL, et al. Adult gastric duplication cyst: diagnosis by endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration (EUS-FNA). *Rev Esp Enferm Dig.* 2008;100:586-90. <https://doi.org/10.4321/s1130-01082008000900011>
14. Varas MJ, Miquel JM, Abad R, Espinós JC, Cañas MA, Fabra R, et al. Ultrasonografía endoscópica intervencionista: Análisis retrospectivo de 60 procedimientos. *Rev Esp Enferm Dig.* 2007;99:1130. <https://doi.org/10.4321/S1130-01082007000300004>
15. Yoda T, Furihata M, Nagao S, Wada T. An adult gastric duplication cyst mimicking a gastrointestinal stromal tumor. *Intern Med.* 2016;55:2401-4. <https://doi.org/10.2169/internalmedicine.55.6402>
16. Feng Y, Ye JN, Chen CQ, Zhang XH. Gastric duplication 20 years after a partial distal gastrectomy: A case report and review of literature. *Ther Clin Risk Manag.* 2019;15:943-9. <https://doi.org/10.2147/TCRM.S206061>
17. Doecker MP, Ahmad SA. Gastric duplication cyst: a rare entity. *J Surg Case Reports.* 2016;5:1-3. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjw073>
18. Hu Y Bin, Gui HW. Diagnosis of gastric duplication cyst by positron emission tomography/computed tomography: A case report. *World J Clin Cases.* 2019;7:3866-71. <https://doi.org/10.12998/wjcc.v7.i22.3866>
19. Hlouschek V, Domagk D, Naehrig J, Siewert JR, Domschke W. Gastric duplication cyst: A rare endosonographic finding in an adult. *Scand J Gastroenterol.* 2005;40:1129-31. <https://doi.org/10.1080/00365520510023314>
20. Ricardo-Ramirez A, Ferreira É, Arango L, Sanchez-Gil A. Manejo endoscópico de quiste de duplicación esofágico: descripción de un caso. *Rev Colomb Gastroenterol.* 2018;33:180-4. <https://doi.org/10.22516/25007440.259>
21. Tjendra Y, Lyapichev K, Henderson J, Rojas CP. Foregut duplication cyst of the stomach: a case report and review of the literature. *Case Rep Pathol.* 2016;2016:1-4. <https://doi.org/10.1155/2016/7318256>
22. Lee S, Uno K, Fujishima F, Hatta W, Koike T. Gastric duplication cyst with occult gist component. *ACG Case Rep J.* 2019;7:3-6. <https://doi.org/10.14309/crj.0000000000000260>
23. Azorín-Samper M del C, Fernández-Palop I, Segura-Jiménez MJ, Fernández-Martínez C, Flors-Alandi C, Checa-Ayet F. Quiste de duplicación gástrico en el adulto. A propósito de un caso. *Cir Cir.* 2019;87:73-6. <https://doi.org/10.24875/CIRU.18000837>
24. Chan BPH, Hyrcza M, Ramsay J, Tse F. Adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst. *ACG Case Rep J.* 2018;5:53-6. <https://doi.org/10.14309/crj.2018.42>
25. Sethi S, Godhi S, Puri SK. Papillary adenocarcinoma in a gastric duplication cyst. *Indian J Surg Oncol.* 2018;9:79-82. <https://doi.org/10.1007/s13193-017-0714-6>
26. Horne G, Ming-Lum C, Kirkpatrick AW, Parker RL. High-grade neuroendocrine carcinoma arising in a gastric duplication cyst. *Int J Surg Pathol* 2007;15:187-91. Available from: <https://doi.org/10.1177/1066896906295777>