



Adenomiomatosis vesicular en un adulto mayor: presentación clínica e histopatológica
Gallbladder adenomyomatosis in an older adult: clinical and histopathological
Presentation

Alberto Aristides Artiles García^{1*}. ORCID: <https://orcid.org/0009-0005-1522-3068>

Felipe Jorge Aragón Palmero¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4594-4489>

Belkis Sonia Cañizares García¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3672-3465>

Emma Midiannys Griñan Fonte¹. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8644-5956>

¹The Cuban Hospital, Dukhan, Al-Shahaniya, Qatar.

*Autor para la correspondencia. Correo electrónico: albeartiles88@gmail.com



RESUMEN

Fundamento: La adenomiomatosis vesicular es una enfermedad degenerativa adquirida que se caracteriza por proliferación epitelial con hipertrofia de la capa muscular y formación de trayectos fistulosos, conocidos como senos de Rokitansky-Aschoff. Se considera un padecimiento benigno y poco frecuente, generalmente diagnosticada a partir de los 50 años, con mayor incidencia en mujeres.

Objetivo: Presentar un caso con diagnóstico de una enfermedad de baja incidencia e infrecuente en adulto mayor y de sexo masculino.

Presentación del caso: Paciente adulto mayor, del sexo masculino, con dolor biliar recurrente de causa litíásica, con hallazgo ultrasonográfico de pólipo vesicular; se le realizó colecistectomía laparoscópica, con diagnóstico anatomopatológico de adenomiomatosis vesicular.

Conclusiones: La presentación clínica e histopatológica de la adenomiomatosis vesicular fue descrita en un paciente colecistectomizado, con litiasis y pólipo identificado por ecografía. Es una enfermedad poco frecuente, diagnosticada entre los 50 y 60 años, con predominio del sexo femenino, se ha caracterizado por ser diagnosticada de forma incidental. El caso presentado constituye uno de los reportes de pacientes del sexo masculino, adulto mayor, diagnosticado y operado debido a esta enfermedad.

DeCS: ADENOMIOMA/patología; COLECISTECTOMÍA LAPAROSCÓPICA; ANCIANO.

Palabras clave: Adenomiomatosis; pólipo vesicular; colecistectomía laparoscópica; adulto mayor; adenomioma; anciano.

ABSTRACT

Background: Vesicular adenomyomatosis is an acquired degenerative disease that is characterized by epithelial proliferation with hypertrophy of the muscular layer and formation of fistulous tracts, known as Rokitansky-Aschoff sinuses. It is considered a benign and rare condition, generally diagnosed after the age of 50, with a higher incidence in women.

Objective: To present a case with a diagnosis of a low-incidence and uncommon disease in older male adults.

Case presentation: Elderly male patient with recurrent biliary pain due to lithiasis, with an ultrasonographic finding of a gallbladder polyp. A laparoscopic cholecystectomy was performed with a pathological diagnosis of gallbladder adenomyomatosis.

Conclusions: The clinical and histopathological presentation of gallbladder adenomyomatosis was described in a cholecystectomized patient, with lithiasis and polyp identified by ultrasound. It is a rare disease, diagnosed between 50 and 60 years of age, with a predominance of the female sex, and has been characterized by being diagnosed incidentally. The case presented constitutes one of the reports of male patients, older adults, diagnosed and operated on due to this disease.

MeSH: ADENOMYOMA/pathology; CHOLECYSTECTOMY LAPAROSCOPIC; AGED.

Keywords: Adenomyomatosis; gallbladder polyp; laparoscopic cholecystectomy; elderly; adenomyoma; aged.

INTRODUCCIÓN

La adenomiomatosis (ADM) vesicular es una lesión benigna, adquirida y de etiología desconocida, sugiriéndose que puede ser una condición degenerativa secundaria a presiones intraluminales elevadas en la vesícula biliar. Esta lesión se caracteriza por una invaginación de la mucosa que se extiende a través del tejido fibromuscular subepitelial, los llamados senos de Rokitsansky-Aschoff (SRA), y acompañándose también de hiperplasia del músculo liso. ⁽¹⁾ En 1960 fue incluida, por Jutras, ⁽¹⁾ dentro de las llamadas, colelitos hiperplásicos, así como las colesterosis, neuromatosis, elastosis, lipomatosis, fibromatosis e hialinocalcinosis.

Con relación a esta enfermedad y sus antecedentes, es curiosa, ya que una de sus características histológicas principales, la formación de saculaciones de la mucosa a través de la capa muscular, formando los SRA, fueron descritos por primera vez por Rokitsansky en 1842, al describir excrecencias de la mucosa vesicular, similares a hernias". Muchos años más tarde, en 1931, King y Mac Callum* denominaron la adenomiomatosis colelitis: *glandularis proliferans*: debido a la proliferación, parecida a glándulas del epitelio vesicular. Kirklinen ese mismo año, fue el primero en describir el diagnóstico colelitológico de los llamados por él, papilomas. ⁽²⁾

Según el grado de afectación de la pared, se identifican tres tipos morfológicos de adenomiomatosis: la tipo focal es un engrosamiento polipoideo focal de la pared del fondo de la vesícula biliar, quien, a menudo, imita un cáncer de vesícula biliar, la tipo segmentaria es un engrosamiento del cuerpo de la vesícula biliar y da como resultado la aparición de una vesícula biliar característica en forma de reloj de arena y la tipo difusa, donde existe un engrosamiento diseminado, y una irregularidad de la mucosa y musculares dando como resultado una apariencia de quiste en la vesícula biliar. ⁽³⁾

El diagnóstico es incidente en ultrasonidos o procedimientos quirúrgicos. La enfermedad teóricamente no requiere tratamiento específico, excepto cuando los pacientes están sintomáticos, con o sin cálculos en la vesícula biliar. ⁽⁴⁾ En las publicaciones consultadas, su incidencia varía entre 1 y 33 % con predominio del sexo femenino, ⁽²⁾ y la edad de máxima incidencia es alrededor de los 50 años. ^(5,6) El propósito de este reporte de caso resulta de una enfermedad con baja incidencia e infrecuente que se presenta en un adulto mayor y del sexo masculino.

El diagnóstico es incidente en ultrasonidos o procedimientos quirúrgicos. La enfermedad teóricamente no requiere tratamiento específico, excepto cuando los pacientes están sintomáticos, con o sin cálculos en la vesícula biliar. ⁽⁴⁾ En las publicaciones consultadas, su incidencia varía entre 1 y 33 % con predominio del sexo femenino, ⁽²⁾ y la edad de máxima incidencia es alrededor de los 50 años. ^(5,6) El propósito de este artículo es presentar un caso con diagnóstico de una enfermedad con baja incidencia e infrecuente en un adulto mayor y del sexo masculino.

PRESENTACIÓN DEL CASO CLÍNICO

Se trató de un paciente masculino, 67 años, con antecedentes de hipertensión arterial de larga fecha, bajo tratamiento médico, en seguimiento por Medicina Interna y Cardiología, se añaden los antecedentes de dislipidemia e hiperuricemia. El paciente, además ha tenido consultas de seguimiento debido a sus antecedentes de dispepsia que evolucionaba por crisis; se le realizó estudios radiológicos que incluyeron ecografía y tomografía, los cuales identificaron cambios en la arquitectura hepática, se observó vesícula biliar normal, sin litiasis u otra anomalía.

El paciente, debido a la recurrencia de las crisis, fue referido a la Consulta Externa de Cirugía General. Se constataron síntomas como dispépticas altas, dolor recurrente en el cuadrante superior derecho, eructos, náuseas y en raras ocasiones vómitos de contenido alimenticio, intolerancia a comidas grasas o al consumo de alimentos colelitológicos.

El examen físico fue negativo. Se indicaron estudios de laboratorio y radiológicos y se dio cita de seguimiento.

Resultados positivos de los exámenes solicitados: elevado valor del ácido úrico, el resto de los complementarios de laboratorio resultaron dentro de límites normales. La ecografía abdominal mostró un hígado de ecogenicidad conversada, textura homogénea, midiendo 14 cm; vena porta de

calibre conservado, no dilatación de vías biliares intrahepáticas, conducto colédoco de calibre normal. Vesícula biliar de tamaño normal, con litiasis visibles en su interior, y un pólipo de 30 x 16 cm, involucrando todas las capas de la pared de la vesícula biliar (Figura 1). El engrosamiento focal de la pared vesicular se identifica con bordes ecogénicos, de apariencia calcificada (Figura 2).



Fig. 1 El proceso inflamatorio involucra todas las capas de la pared vesicular. (Fuente: historia clínica).



Fig. 2 Toda la confluencia del engrosamiento focal de la pared se observa con bordes ecogénicos, simulando calcificaciones. (Fuente: historia clínica).

Se sugirió al paciente la opción quirúrgica como terapéutica luego de explicados los beneficios, riesgos y complicaciones, el consentimiento informado fue firmado. Se realizó de manera electiva colecistectomía laparoscópica, realizando el proceder adecuadamente y sin complicaciones. El paciente fue egresado, buena evolución postoperatoria. El reporte final del Departamento de Anatomía Patológica resultó: signos de colecistitis crónica litiásica y adenomiomatosis (Figura 3), senos de Rokitansky- Aschoff (Figura 4), colesterosis (Figura 5), negativo de malignidad. (Figura 6)

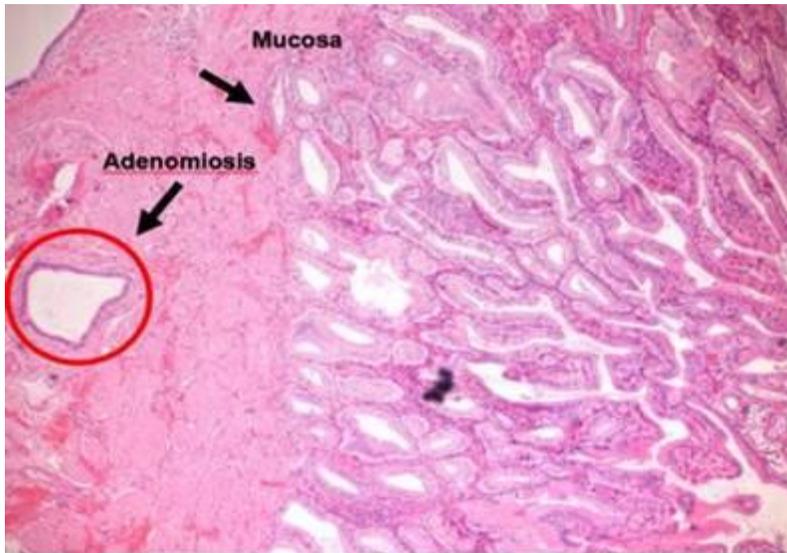


Fig. 3 Vesícula biliar que muestra colecistitis crónica litiásica, adenomiosis. (Fuente: historia clínica).

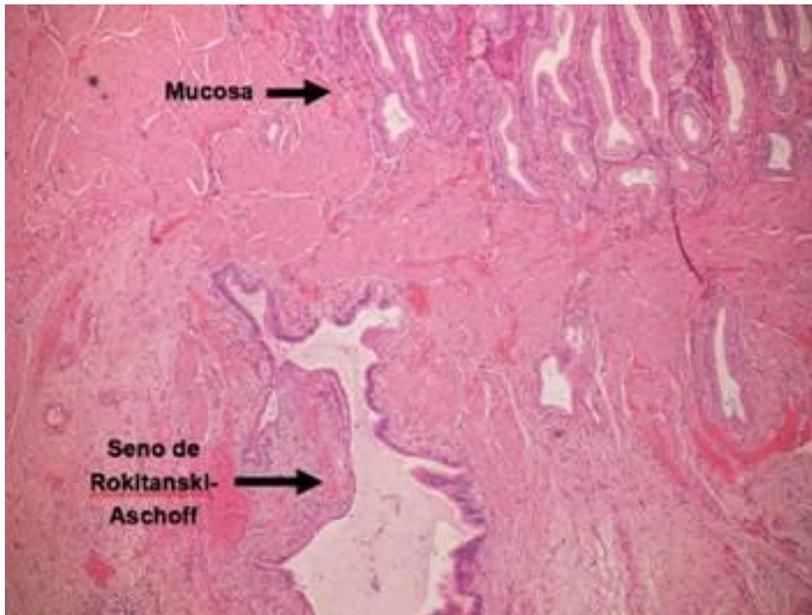


Fig. 4 Vesícula biliar con Senos de Rokitanski- Aschoff. (Fuente: historia clínica).

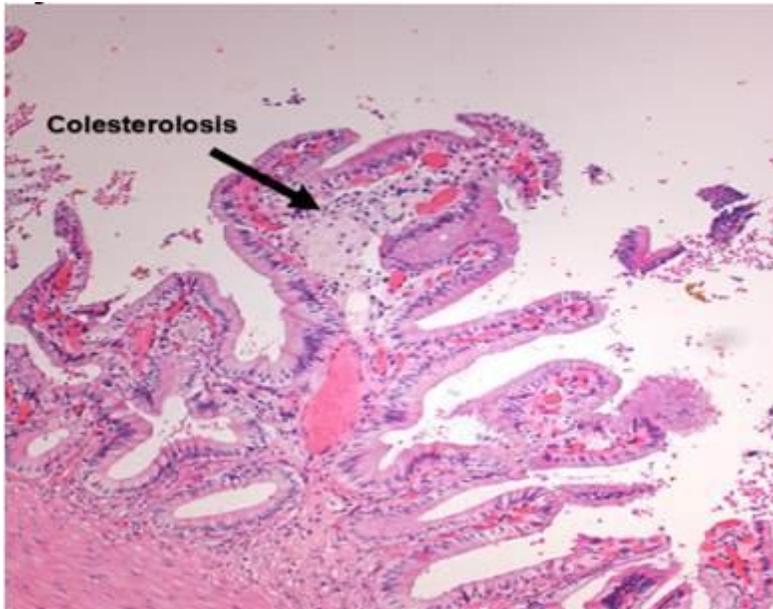


Fig. 5 Vesícula biliar con colesterosis. (Fuente: historia clínica).

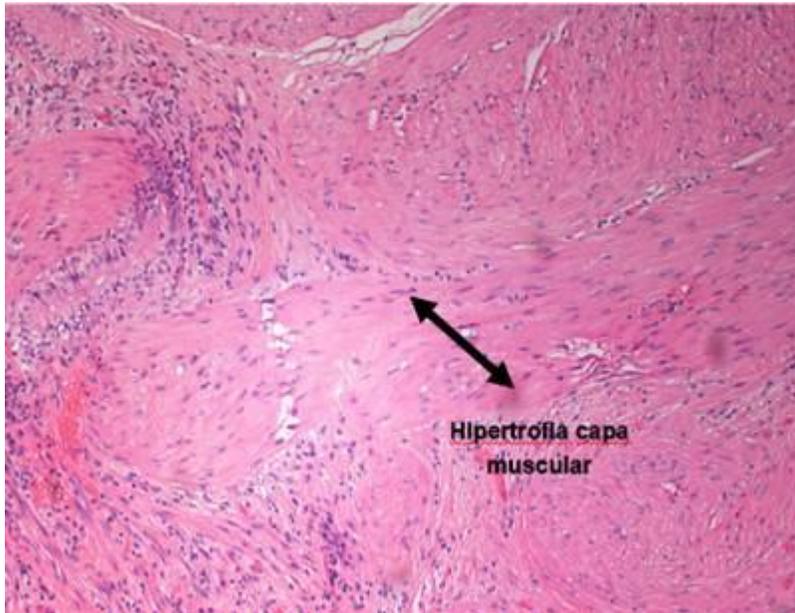


Fig. 6 Vesícula biliar con hipertrofia de la muscular e infiltrado inflamatorio crónico. (Fuente: historia clínica).

DISCUSIÓN

La incidencia de esta enfermedad es del 1 al 8.7 % de todos los pacientes colecistectomizados, y del 1 al 5 % en autopsias. ⁽⁷⁾

La adenomiomatosis vesicular es diagnosticada generalmente a partir de los 50 años, con una distribución mucho mayor en mujer que en hombres 3:1. La sintomatología de este proceso no tiene nada de característico, puede ser similar a la disquinesia o litiasis biliar, acompañándose de dolor en ocasiones de intensidad igual a un cólico hepático. Este dolor puede ser explicado por la excesiva contracción de la musculatura hiperplástica y al exceso de elementos nerviosos presentes en la pared vesicular. En aquellos casos en que se asocia a colesterosis, la sintomatología es dolorosa. ⁽⁸⁾

Esta enfermedad generalmente transcurre de forma asintomática, aunque puede manifestarse como dolor abdominal o estar asociada a una enfermedad inflamatoria crónica del tracto biliar. Las lesiones suelen pasar desapercibidas debido a su presentación asintomática en la mayoría de los casos. Generalmente son detectadas durante un examen radiológico incidental o un examen histológico postoperatorio de muestras de vesícula biliar. Los síntomas son inespecíficos, dolor abdominal difuso y recurrente en el cuadrante superior derecho, ocasionalmente náuseas, incluso vómitos, con niveles normales de transaminasas. ⁽⁹⁾

El ultrasonido es la modalidad primaria para la detección de adenomiomatosis, debido a su superioridad en rentabilidad, fácil manipulación, ausencia de radiación y repetibilidad. Sin embargo, hacer un diagnóstico definitivo con el ultrasonido convencional puede ser difícil, debido a que las características de las imágenes de adenomiomatosis son inespecíficas en algunas ocasiones y pueden imitar malignidad. ⁽¹⁰⁾

Se describen tres tipos o variedades anatómicas de este proceso: 1 - forma generalizada (conjunto de imágenes de aspecto diverticular, que rodean a la vesícula en todo contorno); 2 - forma segmentaria (el proceso no se extiende a toda la vesícula, puede ser la porción central o la distal, no se ha reportado caso única y exclusivamente de la porción proximal, esta forma se caracteriza por la forma bilobulada, de bordes nítidos y regulares); 3 - forma fúndica (ofrece mayor dificultad del punto de vista radiográfico y muestra aspectos más variados). ⁽¹¹⁾

El ultrasonido avanzado, con el uso de contraste es una variante emergente de imagen que utiliza el contraste de microburbujas y explora la microvasculatura tisular. Su uso ha traído resultados alentadores, fundamentalmente en la diferenciación de enfermedades benignas y malignas de la vesícula biliar. Con las pequeñas áreas no realizadas en la fase arterial y en la fase venosa (representadas como senos), junto con focos ecogénicos y la presencia o no del signo de la cola de cometa, el diagnóstico podría ser más certero y fácil. ⁽¹²⁾

El uso de ultrasonido endoscópico (EUS), tomografía axial computarizada (TAC), resonancia magnética nuclear (RMN), y tomografía por emisión de positrones más tomografía computada (PET/CT) con 18-fluorodeoxiglucosa (18-FDG) ayuda a predecir con mayor certeza la etiología de la lesión polipoide. ⁽¹³⁾

Se plantea la resonancia magnética como estándar de oro para el diagnóstico de la enfermedad, debido a que demuestra claramente el engrosamiento de la pared de la vesícula biliar y revela los senos de Rokitsansky-Aschoff. ⁽³⁾

El signo del collar de perlas es muy específico (92 %) de los casos con adenomiomatosis vesicular, no identificándose estas imágenes por estudio en el carcinoma de vesícula biliar. ⁽¹²⁾

Otros autores plantean la tomografía axial computarizada con un valor limitado en la detección y diferenciación de la adenomiomatosis vesicular. La tomografía por emisión de positrones es indicada con el objetivo de esclarecer dudas, cuando hay algún dilema diagnóstico en las imágenes convencionales realizadas. ⁽¹⁴⁾

El diagnóstico diferencial incluye todas las enfermedades que causan engrosamiento de la pared vesicular como: colecistitis crónica, colecistitis xantogranulomatosa o el cáncer de vesícula biliar. ⁽¹⁴⁾ Observamos publicaciones que mencionan una estrecha asociación entre la ADM, la colesterosis y la neuromatosis. ^(8,15) La colesterosis es una anomalía adquirida del epitelio de la vesícula biliar



caracterizada por una hiperplasia mucosa vellosa con excesiva acumulación de ésteres de colesterol y triglicéridos dentro de los macrófagos epiteliales, pudiéndose manifestarse como colesterosis difusa, focal y pólipos. ⁽⁸⁾

La colecistitis xantogranulomatosa es una variante poco frecuente de colecistitis crónica, postulándose que se desarrolla como secuela de la rotura de los senos con extravasación intramural subsecuente de bilis espesa y mucina dentro de la pared vesicular. La bilis extravasada causa una reacción inflamatoria con formación de nódulos xantogranulomatosos intramurales característicos. ⁽¹⁵⁾

La relación existente entre adenomiomatosis vesicular carcinoma continúa en controversia; algunos estudios propusieron que el tipo segmentario de adenomiomatosis, precedía al desarrollo del cáncer de vesícula biliar. Sólo hay evidencia que del 6.4 al 6.6 % de los pacientes con adenomiomatosis vesicular de tipo segmentaria, desarrollarán un cáncer de vesícula biliar a partir de los 60 años. ⁽¹⁰⁾ Investigaciones más recientes, consideran que la adenomiomatosis vesicular y el cáncer de vesícula biliar presentan características histológicas diferentes: la adenomiomatosis se caracteriza por la proliferación epitelial y del músculo liso; mientras que el cáncer de vesícula biliar representa una displasia celular. En la actualidad, la enfermedad no debe considerarse una lesión premaligna según las pruebas disponibles; sin embargo, la presencia de cálculos y la colecistitis pueden provocar cambios displásicos y posteriormente la aparición del cáncer. ⁽¹⁶⁾

No existe un consenso universalmente aceptado para el manejo de la adenomiomatosis vesicular. En aquellos pacientes asintomáticos, puede llevarse a cabo un tratamiento conservador, con seguimiento por ultrasonido al menos dos veces por año, realizando tratamiento individualizado según cada paciente. Algunos autores sugieren tratamiento quirúrgico en la enfermedad tanto sintomática como asintomática, por el riesgo de proliferación; sin embargo, recientes publicaciones hacen énfasis que la enfermedad asintomática no requiere proceder quirúrgico alguno, pero el diagnóstico radiológico debe excluir la malignidad de la vesícula biliar. ^(16,17)

CONCLUSIONES

El caso presentado constituye uno de los reportes de pacientes del sexo masculino, adulto mayor, diagnosticado y colecistectomizado, con litiasis y pólipo identificado por ecografía. Es una enfermedad poco frecuente, diagnosticada entre los 50 y 60 años, con predominio del sexo femenino, se ha caracterizado por ser diagnosticada de forma incidental.

Debido al uso del ultrasonido abdominal como examen básico al paciente, se muestran un incremento en la cantidad de pacientes con este diagnóstico.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Jutras JA. Hyperplastic cholecystoses; Hickey lecture, 1960. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med [Internet]. 1960 [cited 2023 Dec 22];83:795-827. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/14408274/>
2. Rokitansky C. Handbuch der pathologischen Anatomie; 1 [Internet]. Vienna: Braumüller & Seidel; 1842. p.374. [cited 2023 Dec 22]. Disponible en: <https://www.digitale-sammlungen.de/de/view/bsb10369286?page=386>
3. Golse N, Lewin M, Rode A, Sebagh M, Mabrut JY. Gallbladder adenomyomatosis: Diagnosis and management. J Visc Surg [Internet]. 2017 [cited 2022 Dec 22];154(5):345-53. Disponible en: <https://doi.org/10.1016/j.jviscsurg.2017.06.004>
4. Kim JH, Jeong IH, Han JH, Kim JH, Hwang JC, Yoo BM, et al. Clinical/pathological analysis of gallbladder adenomyomatosis; type and pathogenesis. Hepatogastroenterology [Internet]. 2010 [cited 2023 Dec 22];57(99-100):420-5. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/20698201/>
5. Pérez-Alonso AJ, Argote-Camacho ÁX, Rubio-López J, Del Olmo-Rivas C, Petrone P. Adenomiomatosis de la vía biliar, incidencia de 10 años y revisión de la bibliografía actual. Rev Colomb Cir [Internet]. 2015 June [citado 22 Dic 2023];30(2):112-8. Disponible en: <https://www.revistacirugia.org/index.php/cirugia/article/view/319/295>
6. Vera-Portilla AF, Minaya Ruiz MJ, Vera Portilla WA, Galdos Macedo JL. Absceso hepático por colecistitis xantogranulomatosa y adenomiomatosis vesicular: reporte de un caso. Acta Med Peru [Internet]. 2021 Oct 24 [citado 22 Dic 2023];38(3). Disponible en: <https://amp.cmp.org.pe/index.php/AMP/article/view/2075/1414>
7. Joshi JK, Kirk L. Adenomyomatosis [Internet]. Treasure Island (FL): 2022 Dec 9. In: StatPearls [cited 2023 Dec 20]. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK482244>
8. Caroli J. Contribution a l'étude de certaines vésicules multilobées. Paris: Semaine de hôp; 1951.
9. Hoang VT, Van HAT, Nguyen TTT, Chansomphou V, Trinh CT. Diffuse Gallbladder Adenomyomatosis with an Inflammatory Complication in an Adult. Case Rep Gastroenterol [Internet]. 2021 [cited 2023 Dec 22];15(1):100-7. Disponible en: https://journals.lww.com/cancerjournal/fulltext/2018/14001/contrast_enhanced_ultrasound_imaging.45.aspx
10. Shi XC, Tang SS, Zhao W. Contrast-enhanced ultrasound imaging characteristics of malignant transformation of a localized type gallbladder adenomyomatosis: A case report and literature review. J Cancer Res Ther [Internet]. 2018 [cited 2023 Dec 22];14(Suppl):263-6. Disponible en: https://journals.lww.com/cancerjournal/fulltext/2018/14001/contrast_enhanced_ultrasound_imaging.45.aspx

11. Jones HW, Walker JH. Correlation of the pathologic and radiographic findings in tumors and pseudotumors of the gallbladder. Surg Gynec Obstet [Internet]. 1957 [cited 2023 Dec 22];105(5):599-609. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/13486421/>
12. Meacock LM, Sellars ME, Sidhu PS. Evaluation of gallbladder and biliary duct disease using microbubble contrast-enhanced ultrasound. Br J Radiol [Internet]. 2010 Jul [cited 2023 Dec 22];83(991):615-27. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3473688/pdf/bjr-83-615.pdf>
13. Lee J, Yun M, Kim KS, Lee JD, Kim CK. Risk stratification of gallbladder polyps (1-2 cm) for surgical intervention with 18F-FDG PET/CT. J Nucl Med [Internet]. 2012 [cited 2023 Dec 22];53(3):353-8. Disponible en: <https://jnm.snmjournals.org/content/jnumed/53/3/353.full.pdf>
14. Kinoshita H, Ariga H, Shirota J, Sasaki K, Shibukawa Y, Fukuda Y, et al. Combined Fundal and Segmental Adenomyomatosis of the Gallbladder in a Child: A Rare Case Report. Case Rep Pediatr [Internet]. 2019 [cited 2023 Dec 22];2019:[appx 4p]. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6907037/pdf/CRIPPE2019-2659089.pdf>
15. Revzin MV, Scoutt L, Smitaman E, Israel GM. The gallbladder: Uncommon gallbladder conditions and unusual presentations of the common gallbladder pathological processes. Abdom Imaging [Internet]. 2015 [cited 2023 Dec 22];40(2):385-99. Disponible en: <https://link.springer.com/article/10.1007/s00261-014-0203-0>
16. Kai K, Ide T, Masuda M, Kitahara K, Miyoshi A, Miyazaki K, et al. Clinicopathologic features of advanced gallbladder cancer associated with adenomyomatosis. Virchows Arch [Internet]. 2011 [cited 2023 Dec 22];459(6):573-80. Disponible en: <http://link.springer.com/10.1007/s00428-011-3291155-1>
17. Morikawa T, Okabayashi T, Shima Y, Sumiyoshi T, Kozuki A, Saisaka Y, et al. Adenomyomatosis Concomitant with Primary Gallbladder Carcinoma. Acta Med Okayama [Internet]. 2019 [cited 2023 Dec 22];71(2):113-8. Disponible en: https://ousar.lib.okayama-u.ac.jp/files/public/5/54979/20170412170417345808/71_2_113.pdf



Conflicto de intereses

No se declaran conflictos de intereses en el estudio.

Recibido: 13/02/2024

Aprobado: 05/04/2024

Publicado: 24/06/2024

