



Reporte de Caso

Gist sincrónico con adenomioma gástrico: Reporte de caso y revisión de la literatura

Synchronous gist with gastric adenomyoma: Case report and literature review

DOI

<https://doi.org/10.35434/rcmhnaaa.2022.152.1198>

RESUMEN

Introducción: La colisión de dos tumores de diferente estirpe celular en un mismo órgano es infrecuente; a pesar de las asociaciones descritas en la literatura, el hallazgo de GIST con adenomioma en sincronismo, llama aún más la atención debido a sus distintos orígenes celulares. **Reporte de caso:** Presentamos el caso de una paciente mujer de 57 años de edad, quien es sometida a cirugía de resección doble en cuña, y distintos exámenes incluido el anatómo-patológico. **Conclusión:** Se demuestra la presencia de tumores sincrónicos, GIST gástrico y adenomioma gástrico, a pesar de la infrecuencia de este hallazgo.

Palabras Clave: Tumores del estroma gastrointestinal, células intersticiales de Cajal, adenomioma (Fuente: DeCS-BIREME).

ABSTRACT

Background: The collision of two tumors of different cell lines in the same organ is infrequent; even though, the associations described in the literature, the finding of synchronous GIST with adenomyoma draws even more attention due to its different cellular origins. **Case report:** We present the case of a 57-year-old female patient who underwent double wedge resection surgery and various examinations, including pathology. **Conclusion:** The presence of synchronous tumors, gastric GIST and gastric adenomyoma is demonstrated, despite the infrequency of this finding.

Keywords: Gastrointestinal Stromal Tumors, Interstitial Cells of Cajal, adenomyoma. (Source: DeCS-BIREME).

Rakel Cardeña-Mamani^{1,a}, Luis Parra-Montenegro^{2,b}, Giorgio Aita-Campodonico^{3,c}, Julio Torres-Samamé^{4,d}, Willys Flores-Alvarez^{5,e}

FILIACIÓN

1. Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Nacional Almanzor Aguinaga Asenjo, EsSalud, Chiclayo, Perú.
2. Servicio de Cirugía, Hospital Nacional Almanzor Aguinaga Asenjo, EsSalud, Chiclayo, Perú.
3. Servicio de Radiología, Hospital Luis Heysen Inchaustegui, EsSalud, Chiclayo, Perú.
4. Servicio de Gastroenterología, Hospital Regional De Lambayeque, MINSA, Chiclayo, Perú.
5. Facultad de Medicina Humana, Universidad de San Martín de Porres, Chiclayo, Perú.
 - a. Médico especialista en Anatomía Patológica.
 - b. Médico especialista en Cirugía de abdomen.
 - c. Médico especialista en Radiología.
 - d. Médico especialista en Gastroenterología.
 - e. Estudiante de medicina.

ORCID

1. Rakel Cardeña-Mamani / [0000-0001-6796-1293](https://orcid.org/0000-0001-6796-1293).
2. Luis Parra Montenegro / [0000-0001-7278-1799](https://orcid.org/0000-0001-7278-1799).
3. Giorgio Aita Campodonico / [0000-0002-7584-6241](https://orcid.org/0000-0002-7584-6241).
4. Julio Torres-Samamé / [0000-0001-5856-5029](https://orcid.org/0000-0001-5856-5029).
5. Willys Flores-Alvarez / [0000-0003-3446-1617](https://orcid.org/0000-0003-3446-1617).

CORRESPONDENCIA

Rakel Cardeña Mamani

EMAIL

yakye@hotmail.com

CONFLICTOS DE INTERÉS

Los autores niegan conflictos de interés.

FINANCIAMIENTO

Autofinanciamiento

CONTRIBUCIONES DE AUTORÍA

CMRE: Conceptualización, investigación, supervisión, recursos y visualización. PMLA: Investigación, visualización, escritura del borrador inicial y recursos ACG: Investigación, visualización, escritura del borrador inicial y recursos TSJM: Investigación, visualización, escritura del borrador inicial y recursos FAW: Administración de proyecto, visualización y redacción de la versión final.

REVISIÓN DE PARES

Recibido: 20/11/2021

Aceptado: 30/03/2022

COMO CITAR

Cardeña-Mamani R, Parra-Montenegro L, Aita-Campodonico G, Torres-Samamé J, Flores-Alvarez W. Gist sincrónico con adenomioma gástrico: Reporte de caso y revisión de la literatura. Rev. Cuerpo Med. HNAAA [Internet]. 30 de junio de 2022 [citado 26 de septiembre de 2022];15(2):277-9. DOI: [10.35434/rcmhnaaa.2022.152.1198](https://doi.org/10.35434/rcmhnaaa.2022.152.1198)



Esta obra está bajo una Licencia Creative Commons Atribución 4.0 Internacional.
Versión Impresa: ISSN: 2225-5109
Versión Electrónica: ISSN: 2227-4731
Cross Ref. DOI: 10.35434/rcmhnaaa
OJS: <https://cmhnaaa.org.pe/ojs>

INTRODUCCIÓN

El hallazgo de tumores de distinta estirpe celular colisionando en un mismo órgano constituye una infrecuencia dentro de los reportes presentados. Liu et al., en el 2002 reportaron GIST gástrico y adenocarcinoma a la vez. Sin embargo, la aparición de un segundo tumor primario de origen epitelial como el adenomioma gastrointestinal, merece una explicación e investigación mayor; se han descrito la relación de GIST y adenocarcinomas gástricos y duodenales, bajo el concepto del complejo neuroectodermal-endodermo que existe a nivel de duodeno^(1,3).

REPORTE DEL CASO

Presentamos el caso clínico de una paciente mujer de 57 años de edad quien consulta por epigastralgia y sensación de llenura precoz, en el examen endoscópico (Figura 1). Presentó doble lesión submucosa en cuerpo en cara anterior de 25 a 30 mm, y otra en antro, a nivel de curvatura mayor tercio medio de 15 x 18 mm. Ambas sospechosas de leiomiomas. Las imágenes de TAC abdominal muestran dos formaciones expansivas localizadas a nivel de cuerpo, en la cara anterior y antro gástrico, que captan ligeramente contraste de 35,4 x 24 x 23,18 mm (Figura 2) y 24,94 x 20,13 x 18 mm (Figura 3), cuyas características son compatibles con: a. Leiomioma, b. Tumor de GIST.

En el acto quirúrgico se confirmó las lesiones gástricas en cuerpo y antro y se realizó resección en cuña en ambos casos. Al estudio patológico, macroscópicamente se recibió dos nódulos de 3 cm de aspecto fibroso y el menor de 2cm, de aspecto fibroso con áreas microquísticas de 0.2cm. A la vista microscópica presentó patrón fusocelular, sin atipia, ni mitosis, ni necrosis, que fue positivo para c-kit, ki-67 4%, que correspondía a un tumor estromal gastrointestinal (GIST) de bajo grado (Figura 4). Y la segunda tumoración presentó tejido muscular liso con presencia de glándulas gástricas, y antrales, dilatadas en submucosa, y muscular propia (Figura 5). La paciente evolucionó favorablemente, sin complicaciones. Actualmente la paciente se encuentra en control oncológico siendo el GIST de bajo riesgo, se ha realizado estudios de endoscopia de control observando mucosa gástrica sin alteraciones, clínicamente paciente asintomática. Se programa control endoscópico anual, no se ha realizado control imagenológico.

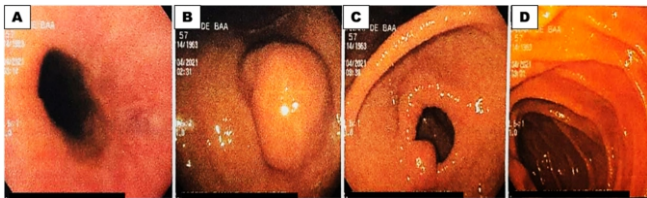


Figura 1.

A. Eritema en cuerpo. B. Lesión submucosa en cuerpo. C. Lesión submucosa en antro. D. Eritema en duodeno.

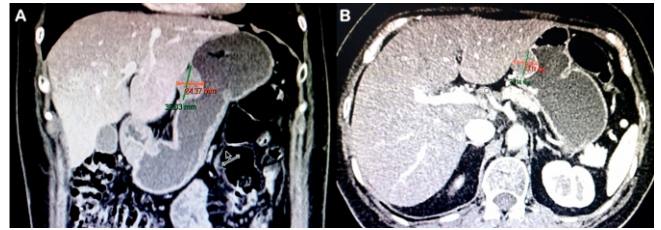


Figura 2.

A y B. Se aprecia lesión sólida expansiva de bordes bien definidos, con cierta captación a la sustancia de contraste localizada en el cuerpo hacia la cara anterior, de 35.03 mm de diámetro cráneo-caudal x 24 mm de diámetro antero-posterior x 23.18 mm de diámetro transversal.

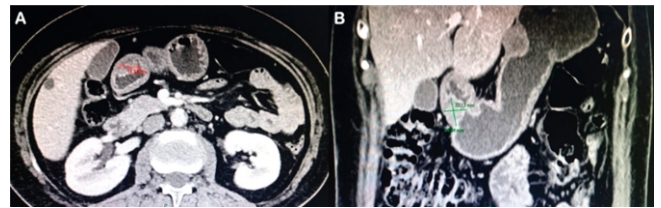


Figura 3.

A y B. Se aprecia lesión en el antro gástrico con cierta captación a la sustancia de contraste, de bordes bien definidos, mide 24.94 mm de diámetro cráneo-caudal x 20.13 mm de diámetro antero-posterior x 18mm de diámetro transversal.

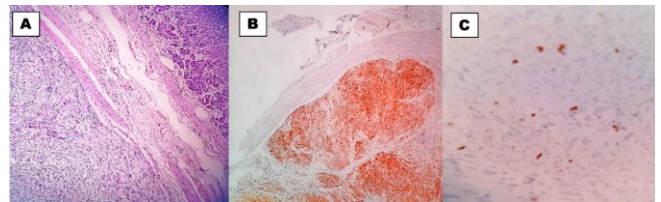


Figura 4.

GIST intramuscular patrón fusocelular, HE 10X. B. CD 117 positivo, 10X. C. Ki67 positivo 4%, 40X.

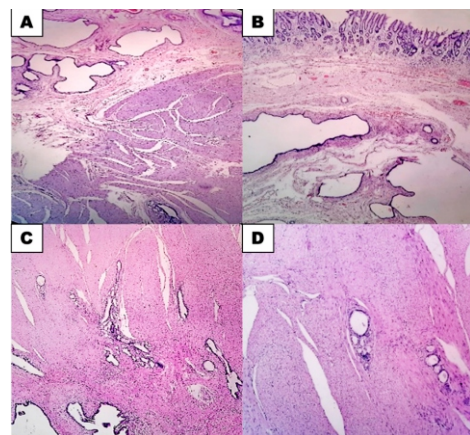


Figura 5.

A. Glándulas gástricas dilatadas en submucosa. HE 10X. B. Muscular propia tumoral. HE 10X. C. Muscular propia con glándulas gástricas dilatadas. HE 10X. D. glándulas antrales en leiomioma. HE 10X.

DISCUSIÓN

A nivel gastrointestinal, se han descrito asociación de tumores con hiperplasias submucosas de los plexos mioentéricos, GIST, carcinomas y carcinoides periampulares, y a veces feocromocitomas, así como paragangliomas duodenales^(4,5). Sin embargo, la asociación de GIST con adenomioma gástrico no está reportado.

Los GIST, derivan de las células intersticiales de Cajal, que controlan el peristaltismo gastrointestinal, morfológicamente se clasifican en fusiformes y epiteliales, una de las variantes que procede de los plexos entéricos son los tumores de los nervios autonómicos gastrointestinales (GANT). Los GIST pueden ser únicos o múltiples, pueden crecer hacia la luz, o hacia la serosa. Al corte presentan coloración oscura y carecen del patrón arremolinado de los leiomiomas y leiomiomasarcomas. Puede contener áreas de hemorragia, la necrosis puede estar asociada a crecimiento mayor y de alto riesgo de metástasis, al microscopio presentan patrón fusiforme y epitelioide o mixtas, la actividad mitótica es variable, la mayor parte 90% son positivas para c-KIT. El c-KIT es el receptor del factor de célula madre, y el PDGFRA es un receptor del factor de crecimiento derivado de las plaquetas (PDGF), se sabe que el 85% de los GIST tienen mutaciones de c-KIT y el 35% de los GIST con c-KIT normal tienen mutaciones de PDGFRA, y tanto el c-KIT como el PDGFRA tienen tirosinasa citoplásmicas que activan vías intracelulares similares. Estas señales favorecen la proliferación celular e inhibe la apoptosis, las mutaciones de c-KIT y las de PDGFRA parecen ser mutuamente excluyentes^(6,7).

El adenomioma gástrico es una tumoración benigna rara, constituida por tejido muscular hipertrofiado con presencia de glándulas sin atipia intramusculares⁽⁸⁾. En 1903, Magnus-Alsleben, reportaron cinco casos de tumores mioepiteliales^(9,10). A los adenomiomas gástricos e intestinales, en la literatura se los ha denominado de diferente maneras, como hematomas mioepitelial, mioglandular, adenomiomatoso, algunos autores consideran como parte de la heterotopía pancreática; sin embargo, la diferenciación glandular aleja el origen pancreático⁽¹¹⁾. Se presenta en cualquier grupo etario, más frecuente en la cuarta y quinta década de la vida. Con presentación gástrica prevalente seguida de intestino delgado y grueso. Asociado a Gastritis quística profunda, como causa de una diverticulosis polipoidea⁽¹¹⁾.

La colisión o sincronismo de dos tumores de diferente estirpe celular en un mismo órgano es infrecuente; se han descrito tumores sincrónicos y metacrónicos, con GIST gástricos y carcinoma neuroendocrino⁽¹²⁾, así como sincrónicos de linfomas y GIST gástricos⁽¹³⁾. Sin embargo, la asociación de GIST y adenomioma no ha sido descrita. El componente glandular en un GIST, figura en casos excepcionales⁽¹⁴⁾, así como su comportamiento maligno.

La presencia de tumores como neurofibromas y carcinoides en el tubo gastrointestinal tienen bases embriológicas descritas por Von Capenhout y mencionado por Klein en 1989, bajo la hipótesis del origen embriológico de las células en el complejo neuroectodermal-endodermal, que comparte las estirpes neurales, endocrinas, y epiteliales esta hipótesis es

base también para suponer el origen epitelial de los adenocarcinomas asociados a NF1⁽⁴⁾. Rara vez los GIST forman parte de un síndrome tumoral como la triada de Carney (GIST gastrointestinal, paraganglioma y condroma pulmonar)⁽¹⁵⁾.

CONCLUSIÓN

Los GIST pueden estar asociados a diferentes tumores ya sea de origen epitelial o neural, así como a tumores mesenquimales mixtos como el adenomioma gástrico, el componente glandular también puede formar parte de la clasificación de GIST aún no descrita, debemos tener presente las diferentes presentaciones y asociaciones de tumores GIST.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Liu S-W, Chen G-H, Hsieh P-P. Collision tumor of the stomach: a case report of mixed gastrointestinal stromal tumor and adenocarcinoma. *J Clin Gastroenterol.* 2002; 35(4): 332-4. DOI: 10.1097/00004836-200210000-00010.
- Rubiales AS, Ovelar Y, Beltrán de Heredia J, Valle ML del. Diagnóstico simultáneo de adenocarcinoma y GIST gástricos. *An Med Interna.* 2005; 22(12): 606-7. DOI: 10.4321/S0212-71992005001200016
- Park EK, Kim HJ, Lee YH, Koh YS, Hur YH, Cho CK. Synchronous Gastrointestinal Stromal Tumor and Ampullary Neuroendocrine Tumor in Association with Neurofibromatosis Type 1: A Report of Three Cases. *Korean J Gastroenterol.* 2019; 74:227-231. DOI: 10.4166/kjg.2019.74.4.227.
- Philpott C, Tovell H, Frayling IM, Cooper DN, Upadhyaya M. The NF1 somatic mutational landscape in sporadic human cancers. *Hum Genomics.* 2017; 11(1):13. DOI: 10.1186/s40246-017-0109-3.
- Costi R, Caruana P, Sarli L, Violi V, Roncoroni L, Bordi C. Ampullary Adenocarcinoma in Neurofibromatosis Type 1: A Report and Literature Review. *Mod Pathol.* 2001; 14(11): 1169-74. DOI: 10.1038/modpathol.3880454.
- Chiao-En W, Chin-Yuan T, Shang-Yu W, Chun-Nan Y. Clinical Diagnosis of Gastrointestinal Stromal Tumor (GIST): From the Molecular Genetic Point of View. *Cancers (Basel).* 2019; 11(5): 679. DOI: 10.3390/cancers11050679
- Somaia N, Ridhi G, Shreyaskumar RP. Gastrointestinal stromal tumors. In: Yalcin S, Philip PA (eds.). *Textbook of Gastrointestinal Oncology.* Suiza: Springer International Publishing; 2019. pp. 289-310. ISBN 978-3-030-18890-0
- Aksay NH, Cevikol C, Oğüs M, Elpek GO, Gelen T. Adenocarcinoma arising in villous adenoma of the ampulla of Vater with synchronous malignant gastrointestinal stromal tumour of the duodenum: a case report. *J Clin Pathol.* 2004; 57(10): 1118-9. DOI: 10.1136/jcp.2004.018143.
- Aljahdali A, Oviedo A, Blair GK. Gastric hamartoma of the pylorus in an infant. *J Pediatr Surg.* 2012; 47: 29-31. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2012.03.047.
- Ly DP, Barnard NJ, Schwarz RE. Gastric adenomyoma: definitely benign or defiantly premalignant?. *Dig Dis Sci.* 2004; 49: 1930-4. DOI: 10.1007/s10620-004-9594-z.
- Yoon KH, Eun DY, Kim JH, Lee SO, Kim HS, Lee DW. Gastric adenomyoma in the stomach body: a case report. *J Med Case Rep.* 2014; 24: 385. DOI: doi: 10.1186/1752-1947-8-385.
- Kövé E, Faluhelyi Z, Bogner B, Kalmár K, Horváth G, Tornóczy T. Dual tumours in the GI tract: synchronous and metachronous stromal (GIST) and epithelial/neuroendocrine neoplasms. *Magy Onkol.* 2004; 48(4): 315-21. PMID: 15655577.
- Bircan S, Candir O, Aydın S, Başpınar S, Bülbül M, Kapucuoğlu N, et al. Synchronous primary adenocarcinoma and gastrointestinal stromal tumor in the stomach: a report of two cases. *Turk J Gastroenterol.* 2004; 15(3): 187-91. DOI: 10.3748/wjg.v19.i20.3117
- Zámecník M, Sosna B, Chlumská A. Gastrointestinal stromal tumor (GIST) with glandular component. A report of an unusual tumor resembling adenocarcinoma. *Cesk Patol.* 2005; 41(4):150-6. PMID: 16382991.
- Klein A, Clemens J, Cameron J. Periampullary neoplasms in von Recklinghausen's disease. *Surgery.* 1989; 106(5): 815-9. PMID: 2510333.