

Hallazgo Incidental de Tumor Estromal Gastrointestinal en Divertículo de Meckel. Caso Clínico

Diego Vallejo P.¹, Marcela Orellana T.¹, Ana Carrillo T.¹

Incidental Finding of a Gastrointestinal Stromal Tumor in a Meckel's Diverticulum: A Case Report

Introduction: Meckel's diverticulum is a saccular defect located in the distal ileum, with a complication rate of 4%. Surgical resection is indicated when these complications occur, yet resection in asymptomatic or incidental cases remains controversial. Among these complications, the appearance of tumors such as gastrointestinal stromal (GIST), may occur. **Case Report:** A 57-year-old male, bedridden due to multiple factors, presents with a complicated grade IV sacral pressure ulcer with a torpid evolution. An end colostomy is performed, evidencing a suspicious-looking Meckel's diverticulum intraoperatively, which was resected and resulted to be a low-risk GIST. At a 6-month follow-up, the patient showed no evidence of tumor recurrence. **Discussion:** While surgery seems to be imperative in complications, there is still a debate regarding the indications for resection of Meckel's diverticulum found incidentally intraoperatively due to surgery for another cause. Although it could increase morbidity and mortality, resection could be indicated according to certain characteristics such as age, sex, size and appearance, given the risk of developing complications and neoplasm.

Keywords: Meckel diverticulum; GIST; gastrointestinal stromal tumors; incidental finding.

¹Hospital DIPRECA, Universidad Diego Portales. Santiago, Chile.

Recibido el 2022-02-10 y aceptado para publicación el 2022-03-21

Correspondencia a: Dr. Diego Vallejo P. dvallejoparada@gmail.com

Resumen

Introducción: El divertículo de Meckel es un defecto sacular ubicado en el íleon distal, con una tasa de complicaciones de 4%. La resección quirúrgica está indicada en estas complicaciones, siendo controversial en casos asintomáticos o incidentales. Dentro de las complicaciones existen tumores como los estromales gastrointestinales (GIST). **Caso Clínico:** Hombre de 57 años, postrado por múltiples factores, presenta úlcera por presión sacra grado IV sobreinfectada y con evolución tórpida. Se decide realizar colostomía terminal, evidenciando un divertículo de Meckel en el intraoperatorio con aspecto sospechoso, por lo cual se decide resecar, resultando en un GIST de bajo riesgo. Se mantiene en seguimiento por 6 meses, sin recidiva tumoral. **Discusión:** Mientras que la cirugía pareciera ser imperativa en complicaciones, aún existe debate respecto a las indicaciones de resección de divertículo de Meckel hallado incidentalmente en el intraoperatorio por cirugía de otra causa. Si bien puede aumentar la morbimortalidad, la resección estaría indicada según ciertas características como edad, sexo, tamaño y aspecto, dado el riesgo de desarrollo de complicaciones y neoplasias.

Palabras clave: divertículo de Meckel; GIST; tumor estromal gastrointestinal; hallazgo incidental.

Introducción

Un divertículo de Meckel (DM) es un defecto sacular del intestino delgado, usualmente localizado dentro de los 100 cm proximales a la válvula ileocecal. Se origina debido a un cierre incompleto del conducto vitelino, siendo la anomalía congénita más común del intestino delgado, con una inci-

dencia del 2% en la población general¹. Los DM suelen ser asintomáticos, pudiendo desarrollar síntomas cuando ocurren complicaciones, en el orden del 4% de los casos². La resección quirúrgica debe realizarse cuando ocurren estas complicaciones, sin embargo, en asintomáticos es controversial. Dentro de las complicaciones de los DM se encuentra hemorragia, perforación, obstrucción y

CASOS CLÍNICOS

raramente, el desarrollo de tumores³. De estos, los más prevalentes son los tumores neuroendocrinos, los adenocarcinomas y los tumores estromales gastrointestinales (GIST)⁴. Estos últimos son tumores mesenquimales que se originan de las células intersticiales de Cajal, células marcapaso del tracto gastrointestinal⁵, y corresponden al 0,1-3% de todos los tumores del tracto gastrointestinal⁶. Los GIST originados en DM son extremadamente raros y pobremente descritos en la literatura^{7,8}. Presentamos el caso de un paciente que desarrolló un GIST en un DM, hallado incidentalmente durante una cirugía abdominal por causa no relacionada. Paciente autoriza publicación de su caso clínico, resguardando información personal. Aprobado por comité de ética local.

Caso clínico

Paciente masculino de 57 años, con antecedentes de hepatitis autoinmune, cirrosis biliar primaria, hepatopatía crónica alcohólica y paraparesia multifactorial, hospitalizado por descompensación de sus patologías. Producto de su postración, generó una úlcera por presión (UPP) sacra grado IV, infectada y complicada con múltiples abscesos locorregionales, manejada con antibioterapia y drenaje percutáneo. En vista de estos hallazgos y en contexto de paciente postrado, con una evolución desfavorable de la UPP sobreinfectada por mal manejo de deposiciones, se decide realizar colostomía terminal de sigmoides. Durante la exploración abdominal, se evidencia en íleon distal, a 60 cm de la válvula ileocecal, un DM de 2,5 cm en su eje mayor, irregular, parcialmente indurado y de coloración oscura, sin evidenciar otras lesiones en la cavidad peritoneal. Se realiza resección de 15 cm de íleon y anastomosis entero-enteral con sutura mecánica según técnica de Barcelona. En el estudio histopatológico se pesquiza proliferación neoplásica de células fusiformes, tinción CD117 positiva, Ki-67 de 1%, conteo de mitosis 2 por 5 mm², y bajo grado histológico (G1). Hallazgos compatibles con GIST de bajo riesgo, con márgenes tumorales libres a más de 1,5 cm. Se discute caso clínico en el comité oncológico del Hospital de la Dirección de Previsión de Carabineros de Chile (DIPRECA), donde se determina seguimiento clínico e imagenológico. Paciente evoluciona sin complicaciones postquirúrgicas, por lo que se decide alta por equipo a los 7 días. A 6 meses de seguimiento, paciente se encuentra en rehabilitación, sin evidencia de recidiva tumoral.

Discusión

El manejo de un DM asintomático hallado incidentalmente durante un procedimiento quirúrgico sigue siendo objeto de debate debido a la morbilidad y mortalidad postquirúrgica asociada a la resección, y en su contraparte, a la probabilidad de complicación del DM en algún momento de la vida del paciente.

Hay autores que recomiendan que los DM sin evidencia de complicaciones hallados incidentalmente durante una cirugía no debieran ser removidos⁹⁻¹². Peoples et al, reportaron una morbilidad y mortalidad asociada a la escisión en pacientes sintomáticos de 0,2 y 0,04%, respectivamente, mientras que estos valores ascendieron a 4,6% y 0,2% en pacientes con resección asintomática¹⁰. Stone et al, reportaron una morbilidad de 8,6% en torno a la escisión asintomática¹¹. En cuanto a las complicaciones postoperatorias, Zani et al, reportaron una tasa de 5,3% al reseccionar los DM asintomáticos comparado con un 1,3% si estos se dejan *in-situ*. Además, reportaron un aumento significativo de obstrucción intestinal y otras complicaciones en pacientes con DM asintomático reseccionado comparado con aquellos a los cuales no se les llevó a cabo resección¹².

Por su parte, hay múltiples referentes que recomiendan la escisión del DM incidental a pesar de no mostrar signos de complicación^{4,13-21}. Cullen et al, reportaron una probabilidad de complicación de un DM durante la vida de 6,4%. La resección quirúrgica de un DM complicado se asocia a una morbilidad y mortalidad de 12% y 2% respectivamente, mientras que estos valores en la resección profiláctica descienden a un 2% y 1%, respectivamente¹³. Chen et al, sugieren la remoción de divertículos incidentales especialmente por el avance de la cirugía laparoscópica en los últimos años, disminuyendo la tasa de morbimortalidad¹⁴.

Otros autores recomiendan la remoción de los DM hallados solamente si presentan características de riesgo para complicación²²⁻²⁹. Park et al, en uno de los estudios retrospectivos más extensos publicados, que incluyó 1.476 pacientes, recomiendan la resección en pacientes menores a 50 años, sexo masculino, divertículo mayor a 2 cm de largo, y características de tejido ectópico o anormal dentro de un divertículo, ya que son las características más prevalentes en DM complicados²². Robijn et al, proponen la resección basada en un sistema de puntuación y de esta manera tomar una decisión según criterios estandarizados²³. Este sistema se basa en cuatro factores de riesgo: edad menor a 45 años, sexo masculino, divertículos mayores de 2 cm y presencia de banda fibrosa. El número de estudios

que recomiendan la resección de todos los DM incidentales durante una cirugía abdominal o aquellos que recomiendan la resección en individuos de alto riesgo ha ido en aumento, destacando un cambio tendencial a resecar los DM²⁹. Sin embargo, a la fecha no existe suficiente evidencia para justificar la remoción profiláctica de DM sin otra indicación para cirugía abdominal⁴.

La mayoría de las publicaciones debaten la resección quirúrgica según la morbilidad y mortalidad, mientras que pocos consideran el riesgo de malignidad en su seguimiento³⁰. Los tumores malignos más prevalentes encontrados en los DM son los tumores neuroendocrinos, GIST, adenocarcinomas, metástasis de otros tumores y linfomas^{1,4,22}. Su diagnóstico usualmente se realiza tras la remoción de un DM sintomático, siendo los hallazgos de DM incidentales, como el caso que presentamos, poco frecuentes en la literatura⁴. Pese a que los tumores dentro de un DM son raros, con una incidencia de 3,2-5,1%^{1,4}, se espera que la incidencia general de cáncer aumente a medida que la población crezca, envejezca y adopte comportamientos de estilo de vida que aumente su riesgo³¹. Es por esto que, a pesar de ser poco frecuentes, debiese tomarse en cuenta el riesgo a futuro de desarrollar cáncer en un DM.

Thirunavukarasu et al, destacan este riesgo, especialmente en pacientes mayores a 50 años. Reportaron que el riesgo de desarrollar cáncer en un DM es al menos 70 veces mayor que en otros sitios del íleon, por lo que la remoción profiláctica de un DM descubierto durante una cirugía debe ser realizada para prevención y detección precoz de cáncer¹⁷. De igual forma, Mora-Guzmán et al, en un estudio más reciente sugieren que los beneficios de la resección profiláctica de DM, por encontrarse en un área con alto riesgo de desarrollar cáncer, supera los riesgos²¹. Debido a que existe un riesgo de tener malignidad localizada en un DM asintomático,

existe un alto potencial para la resección curativa y la supervivencia a largo plazo si este es reseado. En el caso de nuestro paciente, el hallazgo del DM fue incidental durante la exploración intraabdominal. Se decidió la resección de este debido al gran tamaño del DM y el aspecto infiltrativo que poseía. El paciente cumplía con las cuatro características señaladas por Park para la resección profiláctica, resultando en la escisión de un GIST que, por sus características histopatológicas, solamente amerita seguimiento imagenológico³².

En conclusión, el debate sobre la conducta frente a un DM incidental durante una cirugía abdominal ya no se encuentra entre resecar o no el divertículo, sino que hoy es resecar siempre o solamente aquellos con factores de riesgo de presentar complicaciones. Una de las razones en este cambio se debe a la evolución de las técnicas quirúrgicas que han demostrado menor morbilidad y mortalidad asociada. Adicionalmente, es importante considerar el riesgo de desarrollar malignidad en un DM, ya que se estima que al igual que la incidencia general del cáncer, aumente a futuro.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que en este manuscrito no se han realizado experimentos en seres humanos ni animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflictos de interés: Ninguno.

Financiación: Ninguna.

Aprobado por comité de ética local.

Bibliografía

1. Yahchouchy EK, Marano AF, Etienne JC, Fingerhut AL. Meckel's diverticulum. *J Am Coll Surg*. 2001;192:658-62.
2. Turgeon DK, Barnett JL. Meckel's diverticulum. *Am J Gastroenterol*. 1990;85:777-81.
3. Kuru S, Kismet K. Meckel's diverticulum: clinical features, diagnosis and management. *Rev Esp Enferm Dig*. 2018;110:726-32.
4. Van Malderen K, Vijayvargiya P, Camilleri M, Larson DW, Cima R. Malignancy and Meckel's diverticulum: A systematic literature review and 14-year experience at a tertiary referral center. *United European Gastroenterol J*. 2018;6:739-47.
5. Kindblom LG, Remotti HE, Aldenborg F, Meis-Kindblom JM. Gastrointestinal pacemaker cell tumor (GIPACT): gastrointestinal stromal tumors show phenotypic characteristics of the interstitial cells of Cajal. *Am J Pathol*. 1998;152:1259-69.
6. Raut CP, Morgan JA, Ashley SW. Current issues in gastrointestinal stromal tumors: incidence, molecular biology, and contemporary treatment of localized and advanced disease. *Curr Opin Gastroenterol*. 2007;23:149-58.
7. Chandramohan K, Agarwal M, Gurjar G, Gatti RC, Patel MH, Trivedi P. Gastrointestinal stromal tumour in Meckel's diverticulum. *World J Surg Oncol*. 2007;5:50.
8. Lorusso R, Forte A, Urbano V, Soda G, D'Urso A, Bosco MR, et

CASOS CLÍNICOS

- al. I tumori stromali del tenue a localizzazione meckeliana. A proposito di un'osservazione clinica [Small bowel stromal tumors in a "meckelian" location. About a clinical observation]. *Ann Ital Chir.* 2003;74:707-11.
9. Bona D, Schipani LS, Nencioni M, Rubino B, Bonavina L. Laparoscopic resection for incidentally detected Meckel diverticulum. *World J Gastroenterol.* 2008;14:4961-63.
 10. Peoples JB, Lichtenberger EJ, Dunn MM. Incidental Meckel's diverticulectomy in adults. *Surgery.* 1995;118:649-52.
 11. Stone PA, Hofeldt MJ, Campbell JE, Vedula G, DeLuca JA, Flaherty SK. Meckel diverticulum: ten-year experience in adults. *South Med J.* 2004;97:1038-41.
 12. Zani A, Eaton S, Rees CM, Pierro A. Incidentally detected Meckel diverticulum: to resect or not to resect?. *Ann Surg.* 2008;247:276-81.
 13. Cullen JJ, Kelly KA, Moir CR, Hodge DO, Zinsmeister AR, Melton LJ. Surgical management of Meckel's diverticulum. An epidemiologic, population-based study. *Ann Surg.* 1994;220:564-69.
 14. Chen Q, Gao Z, Zhang L, Zhang Y, Pan T, Cai D, et al. Multifaceted behavior of Meckel's diverticulum in children. *J Pediatr Surg.* 2018;53:676-81.
 15. Loh JC, Kruschewski M, Buhr HJ, Lehmann KS. Safety of resection of symptomatic and asymptomatic Meckel's diverticulum and literature review. *Zentralbl Chir.* 2014;139:452-59.
 16. Caricato M, Mangiameli G, Miccadei F, Bulzomi G, Coppola R. A rare case of complicated Meckel's diverticulum. Case report and images. *Ann Ital Chir.* 2010;81:449-51.
 17. Thirunavukarasu P, Sathiaiah M, Sukumar S, Bartels CJ, Zeh H, Lee KKW, et al. Meckel's diverticulum—a high-risk region for malignancy in the ileum. Insights from a population based epidemiological study and implications in surgical management. *Ann Surg.* 2011;253:223-30.
 18. Matsagas MI, Fatouros M, Koulouras B, Giannoukas AD. Incidence, complications, and management of Meckel's diverticulum. *Arch Surg.* 1995;130:143-46.
 19. Gezer HÖ, Temiz A, İnce E, Ezer SS, Hasbay B, Hiçsönmez A. Meckel diverticulum in children: evaluation of macroscopic appearance for guidance in subsequent surgery. *J Pediatr Surg.* 2016;51:1177-80.
 20. Caracappa D, Gullà N, Lombardo F, Burini G, Castellani E, Boselli C, et al. Incidental finding of carcinoid tumour on Meckel's diverticulum: case report and literature review, should prophylactic resection be recommended? *World J Surg Onc.* 2014;12:44-10.
 21. Mora-Guzmán I, Muñoz de Nova JL, Martín-Pérez E. Meckel's diverticulum in the adult: surgical treatment. *Acta Chir Belg.* 2019;119(5):277-81.
 22. Park JJ, Wolff BG, Tollefson MK, Walsh EE, Larson DR. Meckel diverticulum: the Mayo Clinic experience with 1476 patients (1950-2002). *Ann Surg.* 2005;241:529-33.
 23. Robijn J, Sebrechts E, Miserez M. Management of incidentally found Meckel's diverticulum a new approach: resection based on a Risk Score. *Acta Chir Belg.* 2006;106:467-70.
 24. Onen A, Cığdem MK, Öztürk H, Otçu S, Dokucu AI. When to resect and when not to resect an asymptomatic Meckel's diverticulum: an ongoing challenge. *Pediatr Surg Int.* 2003;19:57-61.
 25. St-Vil D, Brandt ML, Panic S, Bensoussan AL, Blanchard H. Meckel's diverticulum in children: a 20-year review. *J Pediatr Surg.* 1991;26:1289-92.
 26. Jadowiec CC, Bayron J, Marshall WT 3rd. Is an Incidental Meckel's Diverticulum Truly Benign?. *Case Rep Surg.* 2015;2015:679097.
 27. Żyluk A. Management of incidentally discovered unaffected Meckel's diverticulum: A review. *Pol Przegl Chir* 2019;91:41-6.
 28. Lequet J, Menahem B, Alves A, Fohlen A, Mulliri A. Meckel's diverticulum in the adult. *J Visc Surg.* 2017;154:253-59.
 29. Rahmat S, Sangle P, Sandhu O, Aftab Z, Khan S. Does an Incidental Meckel's Diverticulum Warrant Resection? *Cureus* 2020;12:e10307.
 30. Lindeman RJ, Søreide K. The many faces of Meckel's diverticulum: update on management in incidental and symptomatic patients. *Curr Gastroenterol Rep.* 2020;22:3.
 31. Torre LA, Siegel RL, Ward EM, Jemal A. Global Cancer Incidence and Mortality Rates and Trends--An Update. *Cancer Epidemiol Biomarkers Prev.* 2016;25:16-27.
 32. National Comprehensive Cancer Network. Gastrointestinal Stromal Tumors (GIST) (Version 1.2021). https://www.nccn.org/professionals/physician_gls/pdf/gist.pdf