

# Metástasis hepática metacrónica de un tumor sólido pseudopapilar de páncreas

DOI: 10.5377/alerta.v7i2.17065

Julio Cesar Alfaro Varela<sup>1\*</sup>, Mario Francisco Interiano Tobar<sup>2</sup>, Glenda Estefanía Álvarez Salazar<sup>3</sup>

1-3. Clínica de Cirugía Hepato-Pancreato-Biliar; Hospital Médico Quirúrgico y Oncológico del Instituto Salvadoreño del Seguro Social, San Salvador, El Salvador.

\*Correspondencia

✉ drjulioalfaro@hotmail.com

1. 0000-0003-4978-9754

2. 0000-0002-1930-5643

3. 0009-0000-2271-1602

## Resumen

**Presentación del caso.** Se trata de una mujer de 32 años quien consultó por dolor abdominal en el epigastrio no asociado a las comidas, tenía el antecedente de una pancreatometomía distal con preservación de bazo debido a un tumor en la cola del páncreas, cinco años previos. En el examen físico no presentó ninguna anomalía y durante su abordaje se realizaron estudios de imagen. **Intervención terapéutica.** La tomografía axial computarizada evidenció una lesión en el segmento lateral izquierdo del hígado con características sugestivas de metástasis debido a su antecedente quirúrgico. Los exámenes de laboratorio y marcadores tumorales se encontraron dentro de límites normales. Se evaluó en conferencia multidisciplinaria y se recomendó un abordaje quirúrgico. Se realizó una hepatectomía izquierda con una evolución posquirúrgica sin complicaciones. **Evolución clínica.** Luego de seis meses posoperatorios, se encontraba sin evidencia de enfermedad activa o residual.

## Palabras clave

Páncreas, neoplasia, hígado, metástasis, neoplasia metacrónica.

## Abstract

**Case presentation.** A 32-year-old woman consulted for abdominal pain in the epigastrium not associated with meals. She had a history of distal pancreatectomy with spleen preservation due to a tumor in the tail of the pancreas five years earlier. Physical examination showed no abnormalities and imaging studies were performed during his approach. **Treatment.** Computed axial tomography revealed a lesion in the left lateral segment of the liver with characteristics suggestive of metastasis due to his surgical history. Laboratory tests and tumor markers were within normal limits. It was evaluated in a multidisciplinary conference, and a surgical approach was recommended. A left hepatectomy was performed with an uncomplicated postoperative evolution. **Outcome.** Six months postoperatively, there was no evidence of active or residual disease.

## Keywords

Pancreas, Neoplasms, Liver, Metastasis, Metachronous Neoplasm.

## Introducción

Los tumores sólidos pseudopapilares del páncreas son considerados como una patología rara, representando solo entre el 1 y el 2 % de todos los tumores exocrinos del páncreas<sup>i</sup>. Los tumores sólidos pseudopapilares del páncreas fueron reportados por primera vez por Frantz en 1959; por lo que en un momento fueron conocidos como tumores de Frantz<sup>ii</sup>. Actualmente la Organización Mundial de la Salud los cataloga dentro de los tumores del sistema digestivo,

como tumores de bajo grado de malignidad, pero con el potencial de causar metástasis; con un reporte en la literatura de aproximadamente 8334 casos hasta el 2018<sup>iii</sup>. La causa de estos tumores todavía es desconocida<sup>iv</sup>.

Alrededor del 90 % de los casos se presentan en mujeres jóvenes, con una edad promedio de 23,9 años<sup>v</sup>. La mayoría de las lesiones sólidas del páncreas son consideradas malignas; sin embargo, este tipo de tumores tiene un comportamiento menos agresivo y raramente presentan metástasis<sup>ii</sup>.



ACCESO ABIERTO

**Metachronous liver metastasis from a solid pseudopapillary pancreas tumor**

## Citación recomendada:

Alfaro Varela JC, Interiano Tobar MF, Álvarez Salazar GE. Metástasis hepática metacrónica de un tumor sólido pseudopapilar de páncreas. Alerta. 2024;7(2):133-137. DOI: 10.5377/alerta.v7i2.17065

## Editor:

Larisa Chavarría.

## Recibido:

30 de agosto de 2023.

## Aceptado:

6 de mayo de 2024.

## Publicado:

24 de julio de 2024.

## Contribución de autoría:

JCAV<sup>i</sup>: concepción de estudio, diseño del manuscrito, búsqueda de la bibliografía, análisis de los datos, redacción, revisión y edición. MFIT<sup>ii</sup>: diseño del manuscrito, manejo de los datos, análisis de los datos, redacción, revisión y edición. GEAS<sup>iii</sup>: recolección de datos, manejo de los datos, análisis de los datos, redacción, revisión y edición.

## Conflicto de intereses:

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.



© 2024 por los autores. Este es un artículo de acceso abierto distribuido bajo los términos y condiciones de la licencia Creative Commons Attribution (CC BY) (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Generalmente estos tumores no presentan síntomas y son hallazgos incidentales. La presencia de lesiones metastásicas es poco frecuente, para la que no hay un consenso en cuanto al manejo ideal en estos casos, ya que estos tumores sólidos pseudopapilares del páncreas no responden adecuadamente a la quimioterapia o radioterapia, por lo que la resección quirúrgica es el tratamiento ideal de tipo curativo, aún en la presencia de lesiones metastásicas<sup>vi</sup>. Debido a lo infrecuente de la patología, se considera que el presente caso es de interés, encontrándose solo información de casos aislados.

## Presentación del caso

Se trata de una mujer de 32 años que consultó en un hospital de tercer nivel, por dolor abdominal localizado en el epigastrio, no asociado a la ingesta de alimentos y no presentaba ictericia, ni pérdida de peso u otro síntoma. Tenía el antecedente de una pancreatectomía distal con preservación de bazo debido a un tumor en la cola del páncreas, cinco años previos. El resultado histopatológico de la biopsia reportó una neoplasia sólida pseudopapilar de páncreas con límites quirúrgicos sanos, no se incluyó el estado ganglionar. Luego, fue referida a un hospital de tercer nivel para la evaluación y tratamiento por oncología. Recibió quimioterapia y radioterapia en cantidad desconocida y tenía tres años de haber suspendido el seguimiento por la especialidad.

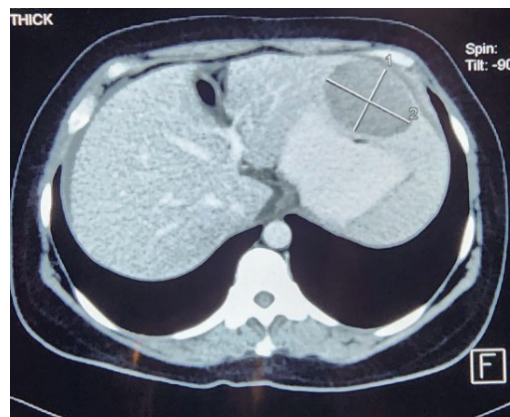
Los signos vitales se reportaron sin anomalías; con una presión arterial de 120/70 mmHg, frecuencia cardiaca de 72 lpm y una temperatura de 37 °C. En el examen físico no se identificaron masas, ni signos de irritación peritoneal. Debido al antecedente oncológico se indicaron marcadores tumorales (CA19-9 y ACE) que se reportaron dentro de límites normales, al igual que el resto de exámenes de laboratorio (Tabla 1).

**Tabla 1.** Exámenes de laboratorio

Hemoglobina	14 gr/dL (VN: 12-16)
Plaquetas	255 000 (VN: 150-400 mil)
Aspartato aminotransferasa (AST)	25 UI (VN: 0-45 UI)
Alanino aminotransferasa (ALT)	20 UI (VN: 0-50 UI)
Bilirrubina total	0,9 mg/dL (VN: < 1,1 mg/dL)
CA19-9	0 (VN: 0-35)
Antígeno carcinoembrionario (ACE)	0 (VN: 0-5)

\*VN: Valor normal.

La tomografía abdomino-pélvica describió una lesión hipodensa en el segmento hepático II, de pared bien definida y con realce en la fase contrastada que midió 5,8 × 4,4 × 4,4 cm con componente quístico complejo de comportamiento indeterminado (Figura 1).



**Figura 1.** Tomografía axial computarizada abdomino-pélvica

Se observó una lesión hipodensa de 37 Unidades Hounsfield (UH) en fase venosa y de 49 UH en fase arterial; midiendo 5,8 × 4,4 × 4,4 cm con componente quístico.

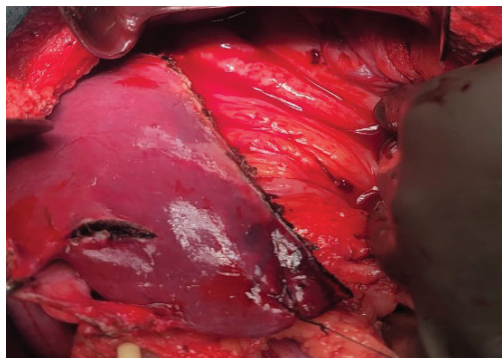
## Intervención terapéutica

El comité multidisciplinario hepato-pancreato-biliar del hospital de tercer nivel de atención evaluó el caso, tomaron en cuenta los antecedentes médicos y las características de las imágenes, debido a esto concluyeron con el diagnóstico presuntivo preoperatorio de una metástasis hepática secundario al tumor sólido pseudopapilar de páncreas extirpado previamente; en consecuencia, sugirieron que se realizara una hepatectomía lateral izquierda (bisegmentectomía II y III) sin necesidad de biopsia preoperatoria, y sin recibir quimioterapia ni radioterapia en el preoperatorio.

La intervención quirúrgicamente tuvo un abordaje por la línea media, en esta se evidenció una masa en los segmentos II y III del hígado, que midió 10 × 15 cm de diámetro: no se encontraron otras lesiones metastásicas (Figura 2). Se realizó el control vascular mediante la maniobra de Pringle y se continuó con la liberación de los ligamentos suspensorios del hígado (coronales y triangulares). Se marcó el sitio de transección en el hígado y se realizó la hepatectomía con un disector y aspirador ultrasónico. La pérdida estimada de sangre fue de 200 mL con un tiempo operatorio de 120 minutos. Se verificó la hemostasia en el sitio de la transección del parénquima, se utilizaron clips



**Figura 2.** Lesión del lóbulo hepático lateral izquierdo, de 10 x 15 cm en los segmentos II y III. Se observa la liberación de los ligamentos triangulares y coronarios



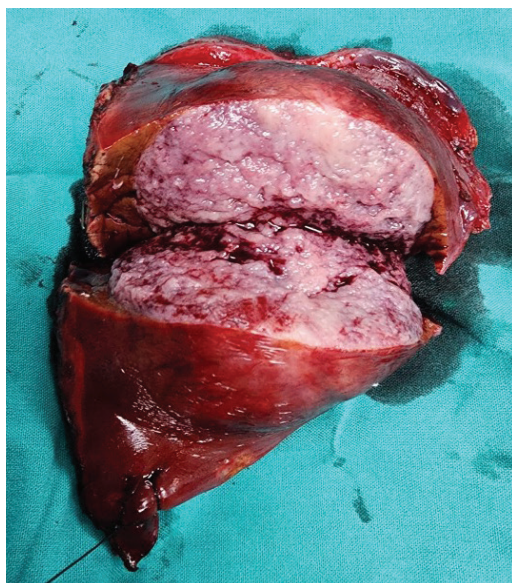
**Figura 3.** Remanente hepático con la zona de transección y bordes macroscópicos libres de tumor

de titanio para ocluir la vía biliar segmentaria y se dejó el material hemostático en el remanente hepático (Figura 3).

## Evolución clínica

En el posoperatorio inmediato recibió analgesia con paracetamol 1 g IV cada ocho horas. Tuvo una evolución satisfactoria y se indicó el alta hospitalaria a las 48 horas posquirúrgicas con el plan de seguimiento en la Unidad de Oncología. No hubo necesidad de transfusión de hemoderivados, ni manejo en cuidados especiales.

En la pieza reseca se observó una lesión de gran tamaño limitada y bien encapsulada que respetaba la superficie del hígado, sin afección de órganos vecinos u otras lesiones metastásicas. Al examinar la pieza se observó tejido sólido con cierto componente quístico de consistencia heterogénea (Figura 4). El reporte de patología describió una lesión metastásica de un tu-



**Figura 4.** Lesión sólida con componentes quísticos bien encapsulada y márgenes quirúrgicos macroscópicamente libres

mor sólido pseudopapilar de páncreas, con bordes negativos y con una cápsula fibrosa bien delimitada. No se consideró necesario la quimioterapia o radioterapia.

## Diagnóstico clínico

El diagnóstico definitivo, basado en el estudio anatomopatológico, fue de un tumor sólido pseudopapilar de páncreas, como una lesión metastásica del hígado, acorde al antecedente del tumor en páncreas.

## Discusión

Los tumores sólidos pseudopapilares de páncreas son una enfermedad poco frecuente que predomina en mujeres jóvenes, con una razón nueve veces mayor<sup>v</sup>, aunque en los hombres se diagnostica en edades avanzadas<sup>vii</sup>. Además, se ha registrado un comportamiento más agresivo en hombres y en mujeres posmenopáusicas, lo que sugiere que la biología del tumor puede tener relación al estímulo de estrógeno<sup>i</sup>. Aún no se tiene certeza del comportamiento biológico.

Por otra parte, se considera que la resección quirúrgica es la mejor opción terapéutica en todos los casos, incluso ante la presencia de lesiones metastásicas o extensión a órganos vecinos<sup>viii,ix</sup>. El sitio de ubicación más frecuente es en el cuerpo y la cola del páncreas, seguido de la cabeza<sup>x</sup>, y se mencionan como los órganos con mayor frecuencia de metástasis al hígado, los ganglios linfáticos, el omento y el peritoneo<sup>xi</sup>.

Se han descrito como principales síntomas el dolor abdominal (51,6 %) y la palpación de una masa abdominal (40,2 %), aunque se presenta en la forma asintomática en el 38,6 % de los casos<sup>x</sup>. Aproximadamente en el 85 % de los pacientes, la enfermedad está limitada al páncreas y solo en el 10 al 15 % se identifican lesiones metastásicas durante la cirugía<sup>v,xi</sup>. Por otra parte, las metástasis a distancia son eventos poco frecuentes, y se

presentan en el 7,7 % de los casos<sup>xii</sup>. En el presente caso el sitio de metástasis fue el hígado y se diagnosticó seis años posteriores a la cirugía índice.

Estos tumores no responden a la quimioterapia o radioterapia, lo que hace que el tratamiento quirúrgico sea su mejor opción<sup>vi</sup>. Debido a esto, se considera que la cirugía es el procedimiento estándar con fines curativos con una mejor sobrevida, mayor al 97 % a los cinco años, en comparación con otros tumores como los adenocarcinomas de páncreas<sup>xii</sup>. Otros tratamientos como la ablación por radiofrecuencia o la quimioembolización (TACE), no están totalmente comprobados como tratamientos curativos y se indican en casos considerados como irresecables<sup>vi</sup>.

Actualmente, no hay guías sobre el manejo de estas lesiones metastásicas a hígado<sup>xiv</sup>. Algunos autores han recomendado la enucleación de los tumores para preservar el parénquima en casos muy seleccionados, como localización periférica y una distancia mayor a 3 mm de la vía biliar o conducto pancreático principal; sin embargo, no están totalmente aceptadas<sup>xv</sup>. En aquellos casos en que las metástasis no son resecables el trasplante hepático ha sido reportado como opción terapéutica con resultados aceptables<sup>xvi</sup>. También está recomendada la resección del tumor primario y de la metástasis, brindando una excelente sobrevida, siempre y cuando se extirpen todas las lesiones<sup>xvii</sup>.

Debido a que el presente caso era solitario y resecable, se decidió por un procedimiento quirúrgico para ofrecer la mejor oportunidad de sobrevida, aún con el carácter incierto de su comportamiento biológico. Un meta-análisis demostró un tiempo promedio libre de enfermedad de aproximadamente 150 meses en los casos de afectación sistémica<sup>xviii</sup>. Otro estudio demostró que los pacientes con recurrencia local o implantes peritoneales tienen una larga sobrevida, un tiempo promedio en que se reportan las metástasis de 8,5 años y generalmente en mayores de 36 años<sup>xix</sup>.

La presencia de metástasis al hígado en el momento del diagnóstico es común; sin embargo, no se ha evidenciado un comportamiento biológico más agresivo en comparación con las metástasis en otros sitios<sup>xi</sup>. Algunos autores han descrito casos que han sido tratados exitosamente mediante cirugía en múltiples etapas para lesiones hepáticas múltiples<sup>xiv,xx</sup>. La sobrevida a los cinco y diez años sin enfermedad es de aproximadamente del 70 % y 65 % respectivamente en los casos de comportamiento agresivo<sup>xviii</sup>. A nivel molecular, se ha demostrado que las alteraciones genéticas del BAP1 y KDM6A pueden estar relacionados con el potencial metastá-

sico de este tipo de tumores<sup>xxi</sup>. Debido a que estas lesiones tienen un comportamiento incierto, se sugiere que el seguimiento debe ser mayor a los cinco años<sup>xxii</sup>.

## Aspectos éticos

El presente trabajo cumple con las normas establecidas en la Declaración de Helsinki y Belmont, respetando la identidad del paciente y todos los aspectos éticos. La información es confidencial, contando con consentimiento informado del paciente para la divulgación de la información con fines científicos.

## Financiamiento

No hubo financiamiento para la realización del presente trabajo.

## Referencias bibliográficas

- i. Antoniou EA, Damaskos C, Garpis N, Salakos C, Margonis G-A, Kontzoglou K, *et al*. Solid Pseudopapillary Tumor of the Pancreas: A Single-center Experience and Review of the Literature. In Vivo. 2017;31(4):501-510. Disponible en: <http://iv.iiarjournals.org/content/31/4/501.abstract>
- ii. Huang H-L, Shih S-C, Chang W-H, Wang T-E, Chen M-J, Chan Y-J. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: Clinical experience and literature review. World Journal of Gastroenterology. 2005;11(9):1403-1409. DOI: [10.3748/wjg.v11.i9.1403](https://doi.org/10.3748/wjg.v11.i9.1403)
- iii. Jena SS, Ray S, Das SAP, Mehta NN, Yadav A, Nundy S. Rare Pseudopapillary Neoplasm of the Pancreas: A 10-Year Experience. Surgery Research and Practice. 2021;2021:e7377991. DOI: [10.1155/2021/7377991](https://doi.org/10.1155/2021/7377991)
- iv. La Rosa S, Bongiovanni M. Pancreatic Solid Pseudopapillary Neoplasm: Key Pathologic and Genetic Features. Archives of Pathology & Laboratory Medicine. 2020;144(7):829-837. DOI: [10.5858/arpa.2019-0473-RA](https://doi.org/10.5858/arpa.2019-0473-RA)
- v. Mao C, Guvendi M, Domenico DR, Kim K, Thomford NR, Howard JM. Papillary cystic and solid tumors of the pancreas: A pancreatic embryonic tumor? Studies of three cases and cumulative review of the world's literature. Surgery. 1995;118(5):821-828. DOI: [10.1016/S0039-6060\(05\)80271-5](https://doi.org/10.1016/S0039-6060(05)80271-5)
- vi. Tanoue K, Matakai Y, Kurahara H, Idichi T, Kawasaki Y, Yamasaki Y, *et al*. Multidisciplinary treatment of advanced or recurrent solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas: three case reports. Surgical Case Reports. 2022;8(1):7. DOI: [10.1186/s40792-022-01358-0](https://doi.org/10.1186/s40792-022-01358-0)
- vii. Kotecha K, Pandya A, Gill AJ, Mittal A, Samra J. Pancreatic solid pseudopapillary

- neoplasm: a single-institution study. *ANZ J Surg.* 2021;91(11):2453-2458. DOI: [10.1111/ans.17142](https://doi.org/10.1111/ans.17142)
- viii. Cruz MAA, Moutinho-Ribeiro P, Costa-Moreira P, Macedo G. Solid Pseudopapillary Neoplasm of the Pancreas: Unfolding an Intriguing Condition. *GE - Portuguese Journal of Gastroenterology.* 2021;29(3):151-162. DOI: [10.1159/000519933](https://doi.org/10.1159/000519933)
- ix. Sibio S, Carlo SD. Current highlights on solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas. *World Journal of Hepatology.* 2022;14(1):300-303. DOI: [10.4254/wjh.v14.i1.300](https://doi.org/10.4254/wjh.v14.i1.300)
- x. Yao J, Song H. A Review of Clinicopathological Characteristics and Treatment of Solid Pseudopapillary Tumor of the Pancreas with 2450 Cases in Chinese Population. *BioMed Research International.* 2020: e2829647. DOI: [10.1155/2020/2829647](https://doi.org/10.1155/2020/2829647)
- xi. Law JK, Ahmed A, Singh VK, Akshintala VS, Olson MT, Raman SP, *et al.* A Systematic Review of Solid-Pseudopapillary Neoplasms: Are These Rare Lesions? *Pancreas.* 2014;43(3):331. DOI: [10.1097/MPA.0000000000000061](https://doi.org/10.1097/MPA.0000000000000061)
- xii. Tang LH, Aydin H, Brennan MF, Klimstra DS. Clinically Aggressive Solid Pseudopapillary Tumors of the Pancreas: A Report of Two Cases With Components of Undifferentiated Carcinoma and a Comparative Clinicopathologic Analysis of 34 Conventional Cases. *The American Journal of Surgical Pathology.* 2005;29(4):512. DOI: [10.1097/01.pas.0000155159.28530.88](https://doi.org/10.1097/01.pas.0000155159.28530.88)
- xiii. Wang X, Chen Y-H, Tan C, Zhang H, Xiong J, Chen H, *et al.* Enucleation of pancreatic solid pseudopapillary neoplasm: Short-term and long-term outcomes from a 7-year large single-center experience. *European Journal of Surgical Oncology.* 2018;44(5):644-650. DOI: [10.1016/j.ejso.2018.01.085](https://doi.org/10.1016/j.ejso.2018.01.085)
- xiv. Wójciak M, Gozdowska J, Pacholczyk M, Lisik W, Kosieradzki M, Cichocki A, *et al.* Liver Transplantation for a Metastatic Pancreatic Solid-Pseudopapillary Tumor (Frantz Tumor): A Case Report. *Ann Transplant.* 2018;23:520-523. DOI: [10.12659/AOT.908764](https://doi.org/10.12659/AOT.908764)
- xv. Hu S, Zhang H, Wang X, Sun Z, Ge Y, Yan G, *et al.* Asymptomatic versus symptomatic solid pseudopapillary tumors of the pancreas: clinical and MDCT manifestations. *Cancer Imaging.* 2019;19(1):13. DOI: [10.1186/s40644-019-0198-4](https://doi.org/10.1186/s40644-019-0198-4)
- xvi. Omiyale AO. Solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas. *World Journal of Hepatology.* 2021;13(8):896-903. DOI: [10.4254/wjh.v13.i8.896](https://doi.org/10.4254/wjh.v13.i8.896)
- xvii. Ranaweera K, Nandasena M, de Silva U, Jayarajah U, Delwatta S, de Silva C, *et al.* Solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas with multiple liver metastases successfully managed with staged resection. *SAGE Open Medical Case Reports.* 2022;10:2050313X221101995. DOI: [10.1177/2050313X221101995](https://doi.org/10.1177/2050313X221101995)
- xviii. Hao EIU, Hwang HK, Yoon D-S, Lee WJ, Kang CM. Aggressiveness of solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas: A literature review and meta-analysis. *Medicine.* 2018;97(49):e13147. DOI: [10.1097/MD.00000000000013147](https://doi.org/10.1097/MD.00000000000013147)
- xix. González Cámpora R, Rios Martin JJ, Villar Rodriguez JL, Otal Salaverri C, Hevia Vazquez A, Valladolid JM, *et al.* Papillary cystic neoplasm of the pancreas with liver metastasis coexisting with thyroid papillary carcinoma. *Arch Pathol Lab Med.* 1995;119(3):268-273. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/7887782/>
- xx. Morito A, Eto K, Matsuishi K, Hamasaki H, Morita K, Ikeshima S, *et al.* A case of repeat hepatectomy for liver metastasis from solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas: a case report. *Surg Case Rep.* 2021;7(1):60. DOI: [10.1186/s40792-021-01134-6](https://doi.org/10.1186/s40792-021-01134-6)
- xxi. Amato E, Mafficini A, Hirabayashi K, Lawlor RT, Fassan M, Vicentini C, *et al.* Molecular alterations associated with metastases of solid pseudopapillary neoplasms of the pancreas. *J Pathol.* 2019;247(1):123-134. DOI: [10.1002/path.5180](https://doi.org/10.1002/path.5180)
- xxii. Lee G, Sung Y-N, Kim SJ, Lee JH, Song K-B, Hwang DW, *et al.* Large tumor size, lymphovascular invasion, and synchronous metastasis are associated with the recurrence of solid pseudopapillary neoplasms of the pancreas. *HPB.* 2021;23(2):220-230. DOI: [10.1016/j.hpb.2020.05.015](https://doi.org/10.1016/j.hpb.2020.05.015)