

## Adenocarcinoma primario de unión ileocutánea

### Primary adenocarcinoma of ileo-cutaneous junction

Andrés Iglesias B.<sup>1</sup>, Ximena Meneses C.<sup>1</sup>, Ignacia Valdés R.<sup>1</sup>, Marianne Kolbach R.<sup>2</sup>, Felipe Belloli R.<sup>1</sup>

#### Resumen

El adenocarcinoma de intestino delgado es una patología poco frecuente, y menos aún de la unión ileocutánea. Tener una ileostomía en el contexto de una cirugía por enfermedad inflamatoria intestinal se ha descrito dentro de los factores predisponentes. Se reporta un caso de adenocarcinoma de unión ileocutánea 34 años posterior a panproctocolectomía por colitis ulcerosa. Se discute la presentación, estudio y posterior tratamiento quirúrgico, además de breve revisión de la literatura.

**Palabras clave:** colitis ulcerosa; adenocarcinoma; ileostomía

#### Abstract

Small bowel adenocarcinoma is a rare disease, and even more of the ileo-cutaneous junction. Having an end-ileostomy after surgery for inflammatory bowel disease has been described among the predisposing factors. A case of ileo-cutaneous junction carcinoma is reported 34 years after total proctocolectomy for ulcerative colitis. We discuss the clinical presentation, diagnostic studies, and treatment, including a brief review.

**Keywords:** ulcerative colitis; adenocarcinoma; ileostomy

Fecha de envío: 2021-11-24 - Fecha de aceptación: 2022-12-22

#### Introducción

El adenocarcinoma de intestino delgado abarca aproximadamente el 3% de las neoplasias gastrointestinales (Pedersen *et al*, 2019). Menos frecuente aún es aquel que se desarrolla en contexto de una ileostomía, publicándose todos como reporte de casos; gran parte asociados a factores predisponentes como preexistencia de neoplasias, síndromes hereditarios como poliposis adenomatosa familiar (Gilson & Sollenberger, 1992), trauma abrasivo, inflamación crónica de la mucosa ileal, enfermedad de Crohn (Yousaf *et al*, 2020) y colitis ulcerosa (Quah *et al*, 2005). En esta última, las publicaciones informan su aparición desde 3 hasta 51 años después de la panproctocolectomía con confección de ileostomía, con un promedio de 30 años (James *et al*, 2018). Esto, sumado a su clínica fácilmente confundible con otras complicaciones del estoma, hacen necesario un alto índice de sospecha.

Nuestro objetivo es presentar un caso de adenocarcinoma de unión ileocutánea, aportar al conocimiento de esta infrecuente patología y así facilitar su detección y manejo precoz.

#### Caso clínico

Paciente de 70 años sexo masculino, con antecedente de panproctocolectomía con ileostomía terminal hace 34 años por colitis ulcerosa crónicamente activa. Desde entonces en buenas condiciones generales, bien adaptado a uso de ileostomía, sin síntomas gastrointestinales ni necesidad de terapia farmacológica. Usuario de finasteride 1 mg día por alopecia, sin otras patologías, uso de medicamentos crónicos ni tabaquismo.

Consulta 3 años atrás por dermatitis periestomal que se maneja con medidas tópicas. Hace 2 años consulta por irritación de piel circundante a ileostomía, humedad y falta de adherencia de bolsa de ostomía. Se diagnostica granulomas peri-ileostomía, pero por pandemia COVID 19, se mantiene alejado de controles y tratamiento, los que se retoman hace 3 meses, donde destacan al examen físico granulomas de circunferencia completa y discreta estrechez estomal que permite el paso del dedo (figura 1). Se maneja con curaciones avanzadas por enfermeras especialistas en estomoterapia con nitrato de plata y alginato de calcio con disminución significativa de su extensión en 40 días de manejo. Sin embargo, en borde inferior de

(1) Unidad de Coloproctología, Departamento Cirugía Digestiva, Facultad de Medicina, Pontificia Universidad Católica de Chile, Santiago, Chile.

(2) Departamento de Dermatología, Facultad de Medicina, Pontificia Universidad Católica de Chile, Santiago, Chile.

Autor de correspondencia: fbelloli@med.puc.cl



tejido periostomal se hace evidente zona inflamada, solevantada e indurada, por lo que se solicita evaluación por dermatología (figura 2).



**Figura 1:** Lesiones periostomales de aspecto granulomatoso, previo a tratamiento local.



**Figura 2:** Lesión indurada en borde inferior que se hace evidente luego de tratamiento local de granulomas.

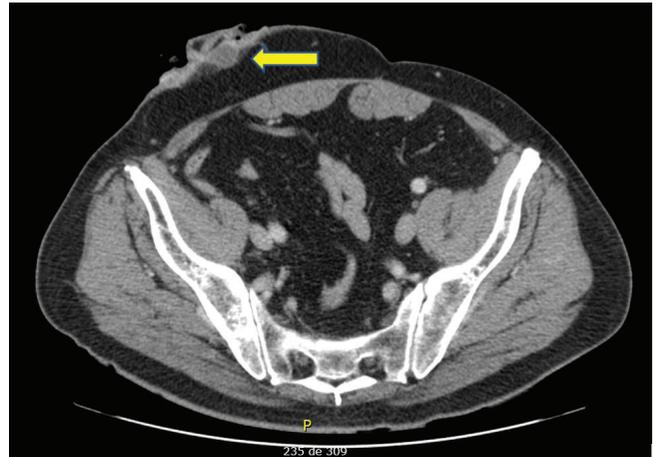
En dicha consulta ante sospecha de lesión maligna, se toma biopsia incisional que evidencia adenocarcinoma tubular moderadamente diferenciado sugerente de origen intestinal. En controles sucesivos, progresa con ulceración de lesión y aumento de volumen indurado focal.

Se complementa estudio con tomografía de tórax, abdomen y pelvis con contraste que muestra lesión nodular sólida hipovascular de 20 x 15mm adyacente a orificio de ostomía, sin lesiones secundarias (figura 3), lo que no se evidenciaba en tomografía tomada 18 meses atrás por estudio de nefrolitiasis. Tras presentación de caso a comité de oncología, se decide manejo quirúrgico.

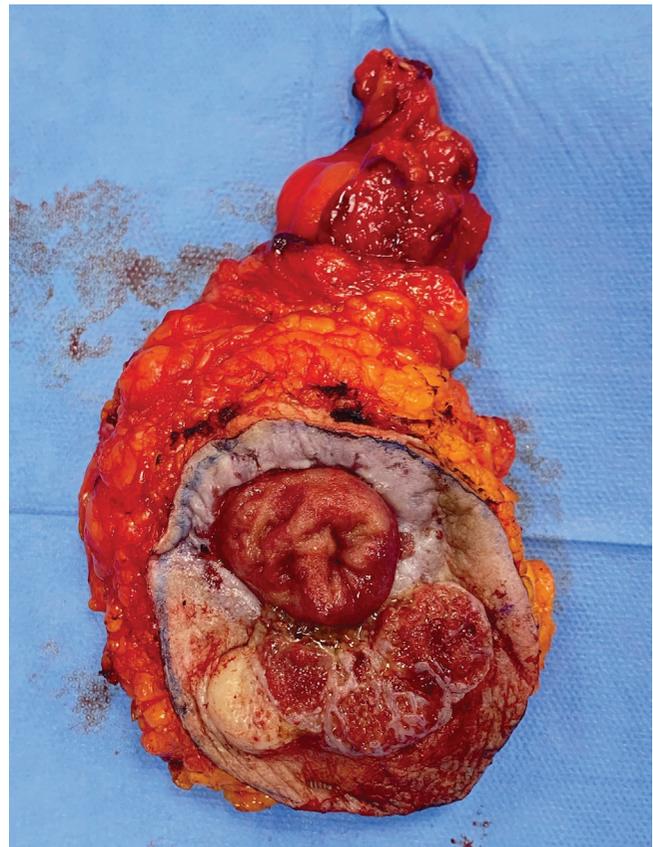
Se realiza resección en bloque de lesión descrita, junto a segmento intestinal de ileostomía y tejidos blandos circundantes hasta plano aponeurótico (figura 4), con reubicación de ileostomía en fosa iliaca izquierda y cobertura de defecto con colgajo fasciocutáneo de Limberg con apoyo de equipo de cirugía plástica. Evoluciona favorablemente sin signos de complicación, por lo que es dado de alta a los 3 días.

Biopsia de pieza operatoria confirma adenocarcinoma tubular moderadamente diferenciado en partes mucinoso, extensamente infiltrante en unión enterocutánea con márgenes quirúrgicos libres, los radiales mayores a 1cm.

Con estos resultados, se discute caso nuevamente en comité oncológico decidiéndose seguimiento clínico estricto, el cuál recientemente inicia.



**Figura 3:** Tomografía de abdomen y pelvis. Se observa lesión nodular sólida hipovascular adyacente a orificio de ostomía (flecha).



**Figura 4:** Pieza operatoria de resección en bloque de adenocarcinoma de unión ileocutánea junto a segmento intestinal y tejidos blandos circundantes.

## Discusión

Una ileostomía es fuente de diversas complicaciones que requieren manejo más o menos agresivo según su etiología (Malik *et al*, 2018; Gilshtein *et al*, 2020). En colitis ulcerosa su confección es necesaria en pacientes que no son candidatos a reservorio ileoanal o presentan falla de éste luego de panproctocolectomía.

El adenocarcinoma de unión ileocutánea o periestomal se publicó por primera vez por Sigler & Jedd (1969) en un paciente operado 19 años antes por colitis ulcerosa con ileostomía, desde entonces otros reportes han sido escritos, encontrándose 42 casos en pacientes con antecedentes de colitis ulcerosa en una revisión de la literatura publicada (James *et al*, 2018). Clínicamente se manifiesta con episodios variables de estenosis de ileostomía, exudado, inflamación, eritema, sangrado, dolor, nodularidades periestomales y dificultad para adherir la bolsa de ostomía luego de un prolongado periodo sin estas dificultades (Carter *et al*, 1988; Achneck *et al*, 2005). Todos ellos, también atribuibles a otras complicaciones, además de poder estar enmascarado por cambios inflamatorios o granulomatosos asociados, como es en nuestro caso.

Si bien su etiología no está del todo clara, se asocia tal como se expresó, a condiciones con riesgo de desarrollar neoplasias, pero también a situaciones que promueven una inflamación crónica del tejido como la irritación química o mecánica a la que está expuesta la zona, pudiendo fomentar cambios displásicos y posteriormente su transformación maligna (Achneck *et al*, 2005; Tinker *et al*, 2020).

En el caso expuesto, se desarrolló 34 años después de panproctocolectomía por colitis ulcerosa, acorde al promedio reportado de aparición desde la confección de ileostomía. Es de suma importancia tener presente que ante lesiones granulomatosas o dermatitis que no responden rápidamente a un tratamiento bien llevado, se debe descartar neoplasia asociada sobre todo en ostomías de largo tiempo. Sin embargo, hay que tener presente que muchas de las biopsias pudieran informar solo inflamación o atipia (Quah *et al*, 2005), por tanto, si la sintomatología persiste, se debe insistir en nuevas muestras (Vasilevsky & Gordon, 1986).

Si bien existen casos con recidiva local, invasión linfonodal y compromiso hepático secundario (Sigler & Jedd, 1969; Bedetti & DeRisio, 1986), afortunadamente la mayoría los casos publicados presentan buena evolución tras resección quirúrgica amplia y reubicación de ileostomía, sin uso de terapia adyuvante en la gran mayoría de los pacientes y sobrevividas de al menos 85% (Metzger *et al*, 2008).

Se debe tener presente que los escasos reportes no constituyen una acumulación considerable de conocimientos, por lo que se deben seguir reportando casos a modo de tener mejores conclusiones que permitan elegir un mejor tratamiento a nuestros pacientes.

## Reconocimientos:

Sin necesidad de apoyo financiero. Aprobado por Comité Ético Científico de Ciencias de la Salud UC (ID Protocolo: 210812006).

Andrés Iglesias realizó la recolección de datos y confección del manuscrito. Ximena Meneses realizó el diseño del trabajo y aporte en la identificación del caso. Ignacia Valdés aportó en material imagenológico y redacción de manuscrito. Marianne Kolbach contribuyó en revisión crítica del manuscrito y en manejo de paciente. Felipe Belloio realizó revisión crítica de manuscrito y su aprobación final. Los autores declaran no tener conflictos de interés ni fuentes de financiamiento.

## Referencias:

- Achneck HE, Wong IY, Kim PJ, Fernandes MA, Walther Z, Seymour NE, & Jain, D. (2005). Ileostomy adenocarcinomas in the setting of ulcerative colitis. *Journal of clinical gastroenterology* **39**, 396–400.
- Bedetti CD. & DeRisio VJ. (1986). Primary adenocarcinoma arising at an ileostomy site. An unusual complication after colectomy for ulcerative colitis. *Diseases of the colon and rectum* **29**, 572–575.
- Carter D, Choi H, Otterson M. & Telford GL. (1988). Primary adenocarcinoma of the ileostomy after colectomy for ulcerative colitis. *Digestive diseases and sciences* **33**, 509–512.
- Gilshtein H, Ghuman A, Dawoud M, Yellinek S, Kent I, Sharp SP. & Wexner SD. (2020). Indications for, and outcomes of, end ileostomy revision procedures. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* **24**, 1352–1357.
- Gilson TP. & Sollenberger LL. (1992). Adenocarcinoma of an ileostomy in a patient with familial adenomatous polyposis. Report of a case. *Diseases of the colon and rectum* **35**, 261–265.
- James SD, Hawkins AT. & M'Koma AE. (2018). Adenocarcinoma at the Ileostomy Site After a Proctocolectomy for Ulcerative Colitis and/or Familial Adenomatous Polyposis: An Overview. *Ostomy/wound management* **64**, 30–40.
- Malik T, Lee MJ, & Harikrishnan AB. (2018). The incidence of stoma related morbidity - a systematic review of randomised controlled trials. *Annals of the Royal College of Surgeons of England* **100**, 501–508.

- Metzger PP, Slappy AL, Chua HK. & Menke DM. (2008). Adenocarcinoma developing at an ileostomy: report of a case and review of the literature. *Diseases of the colon and rectum* **51**, 604–609.
- Pedersen KS, Raghav K. & Overman MJ. (2019). Small Bowel Adenocarcinoma: Etiology, Presentation, and Molecular Alterations. *Journal of the National Comprehensive Cancer Network: JNCCN* **17**, 1135–1141.
- Quah HM, Samad A. & Maw A. (2005). Ileostomy carcinomas a review: the latent risk after colectomy for ulcerative colitis and familial adenomatous polyposis. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* **7**, 538–544.
- Sigler L. & Jedd FL. (1969). Adenocarcinoma of the ileostomy occurring after colectomy for ulcerative colitis: report of a case. *Diseases of the colon and rectum* **12**, 45–48.
- Tinker DG, Roberts S, Hurley MY. & Missall TA. (2020). Cutaneous intestinal metaplasia: An unusual cause of peristomal complication with malignant potential. *Journal of cutaneous pathology* **47**, 479–480.
- Vasilevsky CA. & Gordon PH. (1986). Adenocarcinoma arising at the ileocutaneous junction occurring after proctocolectomy for ulcerative colitis. *The British journal of surgery* **73**, 378.
- Yousaf A, Beatty C, Zinn Z, Cassim R. & Gayam S. (2020). Ileostomy adenocarcinoma in Crohn's disease. *International journal of colorectal disease* **35**, 963–966.