

# Hamartoma de Glándula Peribiliar: Reporte de Dos Casos

## Peribiliar Gland Hamartoma: Report of Two Cases

\*Oscar Tapia E.; \*\*Renato Becker H. & \*\*\*Lilia Antonio P.

---

TAPIA, E. O.; BECKER, H. R. & ANTONIO, P. L. Hamartoma de glándula peribiliar: reporte de dos casos. *Int. J. Morphol.*, 30(2):673-676, 2012.

**RESUMEN:** El hamartoma peribiliar (HPB) o adenoma de conductos biliares corresponde a un tumor hepático benigno, que representa tan solo el 1,3% de todos los tumores primarios del hígado. Macroscópicamente corresponde a una lesión redondeada bien delimitada, subcapsular, siendo habitualmente diagnosticado como un hallazgo intra-operatorio o de autopsia. Se presentan dos pacientes con diagnóstico incidental de HPB realizado en la Unidad de Anatomía Patológica del Hospital Hernán Henríquez de Temuco.

**PALABRAS CLAVE:** Hamartoma peribiliar; Adenoma del conducto biliar; Glándula peribiliar.

---

## INTRODUCCIÓN

El hamartoma peribiliar (HPB) o adenoma de conductos biliares corresponde a un tumor benigno hepático derivado del epitelio de revestimiento de los conductos biliares (Hughes *et al.*, 2010; Kim *et al.*, 2010, Craig *et al.*, 1989).

Esta neoplasia representa tan solo el 1,3% de todos los tumores primarios del hígado, constituyendo su diagnóstico habitualmente un hallazgo intra-operatorio o de autopsia (Allaire *et al.*, 1998; Craig *et al.*). Macroscópicamente el HPB corresponde a una lesión redondeada bien delimitada, no encapsulada, variando su tamaño entre 1 y 20 mm. Histológicamente, se observa como una proliferación confluyente de conductillos biliares rodeados por tejido conectivo que muestra grados variables de fibrosis e inflamación (Allaire *et al.*; Craig *et al.*). Dado lo infrecuente de esta neoplasia, presentamos dos casos de HPB diagnosticados en la Unidad de Anatomía Patológica del Hospital Hernán Henríquez Aravena de Temuco, Chile.

## RELATO DE CASOS

**Caso clínico 1.** Mujer de 31 años sin antecedentes mórbidos que consultó en el servicio de urgencia por cuadro clínico compatible con una colecistitis aguda litiásica. Se efectuó

colecistectomía abierta identificándose en la cara anterior del segmento hepático V una lesión nodular subcapsular blanquecina de 0,4 cm, realizándose biopsia excisional de la lesión.

El estudio anatómo-patológico de la lesión hepática demostró una proliferación glandular de pequeños conductos biliares rodeados por estroma conjuntivo con fibrosis leve e infiltrado inflamatorio redondo celular en la periferia. El revestimiento epitelial glandular sin atipias citológicas ni bilis intraluminal (Fig. 1A, C y E). Con estos hallazgos morfológicos se diagnosticó un HPB.

**Caso clínico 2.** Mujer de 65 años con hipertensión arterial y diabetes mellitus tipo 2 en tratamiento. Sometida en forma electiva a resección de tumor del estroma gastrointestinal (GIST) de intestino delgado, identificándose durante el intra-operatorio lesión nodular solitaria pardo blanquecina de 0,3 cm en el segmento hepático IV y de ubicación subcapsular. Por la sospecha de compromiso hepático secundario se efectuó biopsia intra-operatoria del nódulo que resultó compatible con un HPB, demostrando el corte de congelación y diferido una proliferación compacta de conductillos biliares revestidos por células cúbicas normotípicas, rodeadas por un estroma conjuntivo denso e infiltrado inflamatorio linfocitario en la periferia de la lesión (Fig. 1B, D y F).

\* Departamento de Anatomía Patológica, Facultad de Medicina, BIOREN-CEGIN, Universidad de La Frontera, Temuco, Chile.

\*\* Residente Anatomía Patológica, Universidad de La Frontera, Temuco, Chile.

\*\*\*Departamento de Anatomía Patológica, Facultad de Medicina, Universidad de La Frontera, Temuco, Chile.

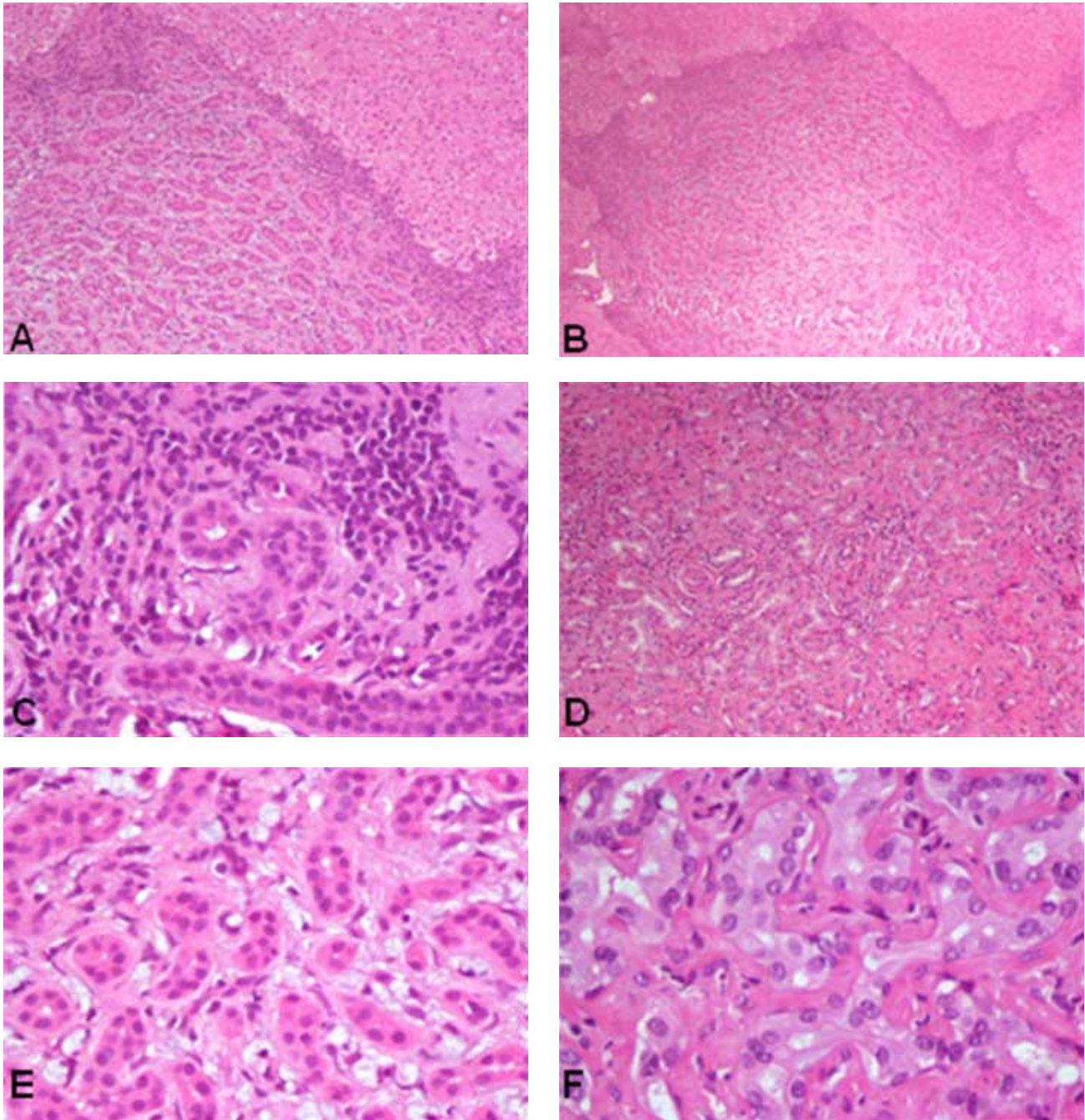


Fig. 1. A-B (20x H-E), C (100x H-E), D (40x H-E), E-F (400x H-E). A-D: Proliferación nodular compacta de conductillos biliares, con infiltrado inflamatorio en la periferia. E-F: Glándulas con epitelio simple cúbico normotípico y estroma con fibrosis en infiltrado inflamatorio linfocitario. No se observa bilis intraluminal.

## DISCUSIÓN

El HPB es una infrecuente neoplasia epitelial benigna del hígado que representa tan solo el 1,3% de todos los tumores hepáticos primarios. Su diagnóstico habitualmente

constituye un hallazgo intra-operatorio o de autopsia (Hughes *et al.*; Kim *et al.*; Allaire *et al.*; Craig *et al.*), constituyendo ambos casos presentados un hallazgo incidental en pacien-

tes asintomáticas; reportando en tanto Allaire et al. 152 HPB en un periodo de 43 años, siendo 49 de ellos diagnosticados durante la autopsia y 103 como hallazgo intraoperatorio.

El origen y la patogénesis de esta neoplasia es todavía controversial, algunos autores lo consideran un hamartoma, mientras que otros un proceso reactivo focal ante una lesión de los conductos; siendo esta última la teoría más aceptada actualmente (Allaire *et al.*; Kim *et al.*; Cho *et al.*, 1978).

Estas lesiones pueden afectar a sujetos entre los 20 y 70 años (promedio 55 años) sin observarse diferencias significativas por sexo. Generalmente corresponden a tumores solitarios, de localización subcapsular, variando su tamaño entre 1 y 20 mm (promedio 5,8 mm), sin embargo, puede también presentarse en forma de múltiples nódulos y de ubicación más profunda. Macroscópicamente se aprecia como un nódulo de consistencia firme, bien delimitado, de coloración pardo blanquecina o grisácea. Microscópicamente, están compuestos por una proliferación glandular de conductillos biliares revestidos por células cúbicas sin atipias nucleares y baja actividad mitótica, rodeadas de estroma conjuntivo con grados variables de fibrosis e inflamación. En ambas pacientes la lesión era pequeña, única y de ubicación subcapsular, sin caracteres

de malignidad en el estudio histopatológico. Cabe mencionar que existen dos tipos de proliferaciones benignas del epitelio biliar intrahepático, el hamartoma de vía biliar o complejos de von Meyenburg y el hamartoma de glándula peribiliar. Mientras la primera es habitualmente múltiple y mal delimitada formada por conductos biliares dilatados que contienen bilis, el HPB es una proliferación compacta de conductos biliares con ausencia de cambios quísticos y bilis intraluminal (Allaire *et al.*; Craig *et al.*; Bhatl *et al.*, 1996; Maeda *et al.*, 2006; Tsui; 1998; Govindarajan & Peters, 1984; Christine & Elizabeth, 2005).

El HPB presenta un comportamiento biológico benigno, sin embargo, su hallazgo intraoperatorio y morfología es una causa frecuente de confusión diagnóstica con adenocarcinomas metastásicos en hígado y colangiocarcinoma, reportando Allaire *et al.* que hasta un tercio de estas lesiones son erróneamente diagnosticados como carcinoma; debiendo por tanto el cirujano y anatomopatólogo estar entrenados para efectuar un adecuado diagnóstico (Maeda *et al.*; Albores-Saavedra *et al.*, 2001; Foucar *et al.*, 1979). En una de las pacientes presentadas se realizó biopsia intra-operatoria por la sospecha clínica de compromiso metastásico descartándose, sin embargo, la naturaleza maligna del tumor.

---

TAPIA, E. O.; BECKER, H. R. & ANTONIO, P. L. Peribiliar gland hamartoma: report of two cases. *Int. J. Morphol.*, 30(2):673-676, 2012.

**SUMMARY:** Peribiliary gland hamartoma (PGH) or bile duct adenoma corresponds to a benign liver tumor, which represents only 1.3% of all primary liver tumors. Corresponds to a macroscopically well-defined round lesion, subcapsular, and is usually diagnosed as an intra-operative findings or autopsy. We report two patients with incidental diagnosis of PGH conducted in the Pathology Unit of the Hospital Hernán Henríquez in Temuco.

**KEY WORDS:** Peribiliary gland hamartoma; Bile duct adenoma; Peribiliary gland.

---

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Albores-Saavedra, J.; Hoang, M. P.; Murakata, L. A.; Sinkre, P. & Yaziji, H. Atypical bile duct adenoma, clear cell type: a previously undescribed tumor of the liver. *Am. J. Surg. Pathol.*, 25(7):956-60, 2001.
- Allaire, G. S.; Rabin, L.; Ishak, K. G. & Sesterhenn, I. A. Bile duct adenoma. A study of 152 cases. *Am. J. Surg. Pathol.*, 12(9):708-15, 1998.
- Bhatl, P. S.; Hughes, N. R. & Goodman, Z. D. The so-called bile duct adenoma is a peribiliary gland hamartoma. *Am. J. Surg. Pathol.*, 20(7):858-64, 1996.
- Cho, C.; Rullis, I. & Rogers, L. S. Bile duct adenoma as liver nodules. *Arch. Surg.*, 113(3):272-4, 1978.
- Christine, A. L. & Elizabeth, M. *Gastrointestinal and Liver Pathology*. Philadelphia, Churchill Livingstone, 2005.
- Craig, J. R.; Peters, R. L. & Edmondson, H. A. Tumors of the liver and intrahepatic bile ducts. In: *Atlas of tumor pathology*. Washington, Armed Forces Institute of Pathology, 1989. pp.56-162.
- Foucar, E.; Kaplan, L. R.; Gold, J. H.; Kiang, D. T.; Sibley, R. K. & Bosl, G. Well-differentiated peripheral cholangiocarcinoma with an unusual clinical course. *Gastroenterology*, 77(2):347-53, 1979.

Govindarajan, S. & Peters, R. L. The bile duct adenoma. A lesion distinct from Meyenburg complex. *Arch. Pathol. Lab. Med.*, 108(11):922-4, 1984.

Hughes, N. R.; Goodman, Z. D. & Bhathal, P. S. An immunohistochemical profile of the so-called bile duct adenoma: clues to pathogenesis. *Am. J. Surg. Pathol.*, 34(9):1312-8, 2010.

Kim, Y. S.; Rha, S. E.; Oh, S. N.; Jung, S. E.; Shin, Y. R.; Choi, B. G.; Byun, J. Y.; Jung, E. S. & Kim, D. G. Imaging findings of intrahepatic bile duct adenoma (peribiliary gland hamartoma): a case report and literature review. *Korean J. Radiol.*, 11(5):560-5, 2010.

Maeda, E.; Uozumi, K.; Kato, N.; Akahane, M.; Inoh, S.; Inoue, Y.; Beck, Y.; Goto, A.; Makuuchi, M. & Ohtomo, K. Magnetic resonance findings of bile duct adenoma with calcification. *Radiat. Med.*, 24(6):459-62, 2006.

Tsui, W. M. How many types of biliary hamartomas and adenomas are there? *Adv. Anat. Pathol.*, 5(1):16-20, 1998.

Dirección para correspondencia:

Dr. Oscar Tapia E.

Departamento de Anatomía Patológica

Facultad de Medicina

Universidad de La Frontera

Manuel Montt 112, Código Postal 478-1176, Temuco

CHILE

Fono: 045-296530

Email:otescalona@gmail.com

Recibido : 01-02-2012

Aceptado: 12-04-2012