

Cisto esplênico com aumento de Antígeno Carboidrato 19-9 (CA 19-9): Relato de caso

Splenic cyst with increased Carbohydrate Antigen 19-9 (CA 19-9): Case report

Daniel Luiz Ribas Henriques^{†*}, Giovanna Alves Peruzini[†], Ingrid de Oliveira Farias[†], Adriana Rodrigues Ferraz[‡]

Como citar esse artigo. Henriques, D.L.R.; Peruzini, G.A.; Farias, I.O.; Ferraz, A.R. Cisto esplênico com aumento de Antígeno Carboidrato 19-9 (CA 19-9): Relato de caso. Revista de Saúde. 2019 Jan./Jun.; 10 (1): 44-47..

Resumo

Os cistos esplênicos (CE) são raros e sua sintomatologia está estritamente relacionada ao tamanho do cisto. O presente artigo tem como objetivo relatar um caso de CE com aumento do Antígeno Carboidrato 19-9 (CA-19-9). O CA 19-9 é descrito como marcador tumoral pancreático e gastrointestinal e sugere-se sua correlação nos casos de CE. No presente relato, F.S, feminino, 33 anos, assintomática, com CE diagnosticado em 2009, através de ultrassonografia (USG). Nova USG em 2010 mostrou aumento do CE e dosagem de CA 19-9 de 123,6 U/ml, em 2016 de 203,7 U/ml. Paciente foi encaminhada para avaliação cirúrgica em ambas as consultas, indicando-se esplenectomia total, não realizada. Em última avaliação em 2018, apresentou CA 19-9 de 637,8 U/ml. Portanto, têm se notado correlação entre o aumento do CA 19-9 com a presença do CE, o que é reforçado pelo presente relato de caso, sugerindo a inclusão na literatura do CE dentre as causas benignas de elevação desse marcador tumoral.

Palavras-chave: Cisto esplênico; CA 19-9; Marcador tumoral.

Abstract

Splenic cysts (SC) are rare and symptomatology strictly related to cyst size. The present article aims to report a case of CE with increase of Carbohydrate Antigen 19-9 (CA-19-9). CA 19-9 is described as a pancreatic and gastrointestinal tumor marker and its correlation in SC cases is suggested. In the present report, F.S, female, 33 years old, asymptomatic, with SC diagnosed in 2009, by ultrasonography (US). New USG in 2010 with CE increase and CA 19-9 dosing of 123.6 U / ml in 2016 of 203.7 U / ml. Patient was referred in both consultations, for the surgical evaluation, with indication of total splenectomy, not performed. In the last evaluation in 2018, it presented CA 19-9 of 637.8 U / ml. Therefore, a correlation has been observed between the increase in CA 19-9 with the presence of the SC, which is reinforced by the present case report, suggesting the inclusion in the SC literature of the benign causes of elevation of this tumor marker.

Keywords: Splenic cyst; CA 19-9; Tumor marker.

Introdução

Os Cistos Esplênicos (CE) são uma afecção de rara ocorrência e, dentre as lesões esplênicas, são as de menor prevalência¹. Os CE podem ser classificados de diversas maneiras e uma delas leva em consideração a presença, ou não, de revestimento epitelial interno do cisto. Sendo assim, eles podem ser primários, também chamados de verdadeiros, por possuírem revestimento epitelial, e secundários ou pseudocistos, por não possuírem revestimento epitelial interno¹³. Os cistos verdadeiros são encapsulados e podem ser de etiologia parasitária, congênita, vascular ou neoplásica², enquanto os cistos secundários não têm cápsula e são formados

por tecido fibroso^{1,2}. Quando de origem parasitária, os cistos verdadeiros frequentemente são causados pelo *Echinococcus granulosus*¹³. Na maioria dos casos, os CE são assintomáticos, sendo diagnosticados através de exames de imagens, justificando o aumento de relatos com a evolução tecnológica dos meios diagnósticos.

Nos anos 1980 uma análise através de 42.327 autópsias revelou apenas 32 casos de cistos benignos verdadeiros não parasitários^{3,4,5}. Esses cistos correspondem ainda a 30 a 40% das lesões esplênicas⁶. Até o ano de 2012, aproximadamente 30 casos de CE epiteliais associados a altas concentrações séricas de CA 19-9 foram reportados na literatura e por isso, existe um número reduzido de dados⁷.

Os cistos do tipo primário são mais comumente

Afiliação dos autores: † Discente da Universidade de Vassouras; Vassouras/RJ; Brasil

‡ Docente da Universidade de Vassouras; Vassouras/RJ; Brasil

* Email de correspondência: dlrh2012@gmail.com

encontrados em crianças e adultos jovens e são os que cursam, geralmente, de maneira assintomática e descobertos incidentalmente durante uma ultrassonografia (USG) de rotina. Já os cistos secundários, podem ser originários de trauma abdominal, mas esta etiologia não é considerada por alguns autores, que acreditam que o cisto secundário apresente origem congênita ou resíduo de quadros infecciosos, como a tuberculose, mononucleose ou malária^{14,15}. O revestimento epitelial dos cistos primários não-parasitários pode ser de tecido cuboide, colunar, escamoso ou mesotelial⁶. A origem mesotelial propõe uma justificativa para ocorrência dos CE, em que se acredita que ocorra uma invaginação mesotelial com células pluripotenciais com capacidade de sofrerem metaplasia¹⁵.

A maioria dos CE é de caráter assintomático e apenas de 30-40% dos cistos cursam com uma massa palpável. Contudo, o tamanho do cisto pode promover sintomas como: sensação de plenitude e desconforto abdominal superior, dor torácica pleurítica, dispneia, lombalgia, náuseas ou sintomas renais⁸. Um cisto grande pode causar dor e desconforto devido a compressões extrínsecas dos órgãos adjacentes e alterações laboratoriais como a trombocitopenia⁹. Os principais exames de imagem utilizados para diagnóstico são: radiografia simples de abdome, USG, tomografia computadorizada (TC), ressonância nuclear magnética (RNM) e angiografia^{8,9}. Além disso, esses exames são úteis para diagnóstico diferencial preferencialmente com infecções parasitárias, traumas, malformações congênitas, neoplasias e metástases.

As células epiteliais geralmente são positivas para os marcadores tumorais Antígeno Carboidrato 19-9 (CA 19-9) e para o antígeno carcinoembrionário (CEA), apesar dos cistos serem benignos e não possuírem potencial maligno maior que outros tecidos¹⁰. O CA-19-9 foi descrito em 1979 como um marcador de tumor colorretal, sendo hoje mais utilizado como marcador de tumor pancreático, além de poder ser encontrado em lesões gastrointestinais e pancreáticas benignas, como por exemplo, cirrose hepática, colangite aguda, doença obstrutiva e pancreatite. Atualmente, sugere-se também que cistos esplênicos benignos verdadeiros podem levar ao aumento dos níveis séricos deste marcador tumoral, como reforçado no presente relato de caso.

O presente relato tem como objetivo descrever um caso observado desde março de 2010 na cidade do Rio de Janeiro, de uma paciente com CE verdadeiro não parasitário com elevação do marcador tumoral CA 19-9 e correlacionar com dados da literatura de modo a reforçar a inclusão do CE como causa de aumento do CA 19-9.

Relato de caso

Mulher, 33 anos de idade, hígida, procurou o ambulatório de gastroenterologia para exames de rotina em 2009 (Figura 1). Nesta ocasião a paciente encontrava-se assintomática e ao exame físico completo não foram identificadas alterações. Apesar disso, foi solicitada uma ultrassonografia (USG) de abdome em que se encontrou cisto esplênico (CE), medindo 6,5cm x 6,4 cm e de caráter avascular. Por isso motivo, até o ano de 2017 realizou acompanhamento regular através de exames de imagem (Figura 3) e exames laboratoriais, resumidos na Tabela 1 em que foi possível notar aumento na dosagem de CA19-9, obtendo como menor valor 107,3 U/mL em 2012, 203,7 U/mL em 2016 e 637,8 em 2018. Devido ao aumento no tamanho do CE, a paciente foi encaminhada para avaliação com cirurgião geral recebendo indicação de esplenectomia total, a qual não foi realizada até o presente momento por recusa da paciente.

Discussão

Os CE são tumores benignos que acometem o baço e são classificados em cistos primários ou secundários^{1,4,5,11}. Em geral os CE são assintomáticos e constituem um achado dos exames de imagem. Quando há presença de sintomatologia, esta tem estreita correlação com o tamanho do cisto, podendo causar sintomas variados, desde desconforto abdominal a sintomas compressivos^{3,4}. Alguns estudos demonstraram uma correlação entre CE primários e a elevação do CA 19-9^{3,11}.

A manifestação do cisto presente na paciente relatada se assemelha com a maior parte das descrições encontradas na literatura, acometendo preferencialmente mulheres com menos de 40 anos e, ainda, se apresentando de modo assintomático, sendo geralmente um achado nos exames de imagem^{2,3,4,12}.

Um estudo realizado no Japão mostrou forte evidência entre os CE epidermóides, epiteliais ou linfoproliferativos com o aumento do marcador CA 19-9.

Em relação ao aumento do CA 19-9 em CE, segundo Schlittler *et al.* 2010, após realizada esplenectomia total, os níveis séricos do marcador normalizaram-se, sendo uma forma concreta de relacionar a elevação do marcador com a presença do cisto¹¹. No entanto, essa correlação não foi possível de ser analisada na paciente descrita visto que a mesma se negou a realizar a intervenção cirúrgica¹¹, ainda assim, comparando os momentos de avaliação do caso é possível traçar a correlação entre o CA 19-9 e a presença e tamanho do cisto. Tem-se que de 2009 (Figura 1) até 2010 (Figura 2) o cisto cresceu de 6,5 x 6,4 para 8,9 x 6,3 cm, mas nos dois momentos ainda não havia sintomatologia, sugerindo que o tamanho necessário



Figura 1. USG com Doppler realizada em 2009 evidenciando o CE



Figura 2. USG realizada em 2010 para acompanhamento do CE



Figura 3. Ecoendoscopia alta realizada em 2017 para acompanhamento do CE

Tabela 1. Exames laboratoriais realizados no período de 2009 a 2017

Ano	Tamanho do cisto	TGO	TGP	GGT	FA	CA 19-9
2009	6,5x6,4 cm	Não avaliado				
2010	8,9x6,3 cm	62 U/L	117 U/L	105U/L	90 U/L	123,6 U/ml
2012	Não avaliado	Não avaliado	Não avaliado	Não avaliado	Não avaliado	107,3 U/ml
2016	Não avaliado	44 U/L	79 U/L	58 U/L	Não avaliado	203,7 U/ml
2017	Não avaliado	30 U/L	42 U/L	Não avaliado	Não avaliado	113 U/ml
2018	6,15x6,27 cm	Não avaliado	Não avaliado	Não avaliado	Não avaliado	637,8 U/ml

para gerar sintomas é superior ao apresentado.

Os achados do caso corroboram que a origem desse marcador tumoral no caso apresentado está correlacionada ao cisto esplênico verdadeiro e vai de encontro com os dados da literatura que correlacionam seu tamanho à elevação sérica do marcador, podendo ser considerado, portanto um marcador eficiente para o diagnóstico de tal doença.

Considerações finais

Desse modo, nota-se que o caso descrito é semelhante aos outros descritos na literatura, acometendo mulheres, jovens com menos 40 anos. Podendo-se ainda concluir que os CE primários são uma entidade de baixa ocorrência que possui uma apresentação comumente assintomática e por isso, são geralmente diagnosticados de maneira incidental durante exames de rotina como, por exemplo, a USG com Doppler.

Além disso, apesar da escassez de casos relatados na literatura, tem se notado uma correlação entre o aumento da dosagem do CA 19-9 com a presença do CE, sendo a esplenectomia o tratamento clássico indicado. Sendo assim, deve-se incluir, portanto o CE primário como uma das causas benignas de elevação desse marcador tumoral.

Referências

1. Matsumoto S, Mori T, Miyoshi J, Imoto Y, Shinomiya H, Wada S, et al. Huge splenic epidermoid cyst with elevation of serum CA19-9 level. *The Journal of Medical Investigation* 2015;62:89–92.
2. Hoshino A, Nakamura Y, Suzuki H, Mizutani S, Chihara N, Matsunobu T, et al. Giant epidermoid cyst of the spleen with elevated CA 19-9 production managed laparoscopically: report of a case. *J Nippon Med Sch.* 2013;80:470–474.
3. Trompetas V, Panagopoulos E, Priovolou-Papaevangelou M, Ramantanis G. Giant benign true cyst of the spleen with high serum level of CA 19-9. *Eur J Gastroenterol Hepatol*2002;14:85–88.
4. Vo QD, Monnard E, Hoogewoud HM. Epidermoid cyst of the spleen. *BJM*

Case Rep. 2013.

5. Wakasugi M, et al. Laparoscopic Distal Pancreatectomy for Multiple Epithelial Cysts in an Intrapaneatic Accessory Spleen. A Case Report and Review of Literature. *J Pancreas.* 2013; 14(6): 603-693.

6. Inokuma T, Minami S, Suga K, Kusano Y, Chiba K, Furukawa M. Spontaneously Ruptured Giant Splenic Cyst with Elevated Serum Levels of CA 19-9, CA 125 and Carcinoembryonic Antigen. *Case Rep in Gastroenterol.* 2010;4:191–197.

7. Milanetto AC, Iaria L, Alaggio R, Pedrazzoli S, Pasquali C. Squamoid Cyst of Pancreatic Ducts: A Challenging Differential Diagnosis among Benign Pancreatic Cysts. *J Pancreas.* 2013; 14(6): 603-693.

8. Van Lacum M., Hessels RAP., Kremer G., Jaspers CAJ. A splenic cyst and a high serum CA 19-9: a case report. *Euro Jour of Int Med.* 2000;11:104–107.

9. Rana APS. Splenic Epidermoid Cyst - A Rare Entity. *Jour Clin Diag Rese.* 2014; 8(2): 175-176

10. Paksoy M, Karabicak I, Kusaslan R, Demiryas S, Ayan F, Ertem M. Laparoscopic splenic total cystectomy in a patient with elevated CA 19-9. *JourSocLaparSurg.* 2006;10 (4):507–510

11. Schlittler LA, Dallagasperina VW. Cistos esplênicos não-parasitários. *Rev Col Bras Cir.* 2010;37(6):442–446

12. Papadopoulos IN, Davatzikos A, Kasabalas G, Manti C, Konstantoudakis G. Primary epithelial splenic cyst with micro-rupture and raised carbohydrate antigen CA 19-9: a paradigm of management. *BMJ Case Rep.* 2010;2010: bcr012010263

13. J. Sáez et al. Quiste esplênico no parasitario: revisión de la experiencia en un hospital clínico universitario. *Rev Chil Cir.* 2017;69(4):315-319

14. Manciu S, Tudor S, Vasilescu C. Splenic Cysts: A Strong Indication for a Minimally Invasive Partial Splenectomy. Could the Splenic Hilar Vasculature Type Hold a Defining Role?. *World J Sur.* 2018; 42(11):3543-3550

15. McColl RJ, Hochman DJ, Sample C. Laparoscopic management of splenic cysts: marsupialization, cavity lining with surgicel and omentopexy to prevent recurrence. *Surg LaparoscEndoscPercutan Tech.*2007; 17(5):455–458

16. Matsui T, et al. A Splenic Epithelial Cyst: Increased Size, Exacerbation of Symptoms, and Elevated Levels of Serum Carcinogenic Antigen 19-9 after 6-year Follow-up. *Intern Med.* 2016; 55(18): 2629-2634