

ABCDDV/1286

ABCD Arq Bras Cir Dig

2017;30(1):71-72

DOI: /10.1590/0102-6720201700010020

Carta ao Editor

# ADENOMA DE GLÂNDULA DE BRUNNER MASCARADO COMO TUMOR GASTROINTESTINAL ESTROMAL DUODENAL INTUSSUSCEPÇÃO: RELATO DE CASO

*Brunner gland adenoma masquerading as duodenal gastrointestinal stromal tumor with intussusception: case report*

Gunjan **DESAI**<sup>1</sup>, Kamal **YADAV**<sup>1</sup>, Prasad **PANDE**<sup>1</sup>, Priyanka **SALI**<sup>1</sup>, Chandralekha **TAMPI**<sup>2</sup>, Prasad **WAGLE**<sup>1</sup>

Trabalho realizado no <sup>1</sup>Department of Gastrointestinal Surgery and <sup>2</sup>Pathology, Lilavati Hospital and Research Center, Bandra Reclamation, Bandra West, Mumbai 400050, Maharashtra, India.

**DESCRITORES** - Neoplasia duodenal. Hamartoma. Intussuscepção

**HEADINGS** - Duodenal neoplasms. Hamartoma. Intussusception.

**Correspondência:**

Gunjan Desai  
Email: dsshsh@yahoo.com

Fonte de financiamento: não há

Conflito de interesses: não há

Recebido para publicação: 16/02/2016

Aceito para publicação: 17/11/2016

 This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License.

## INTRODUÇÃO

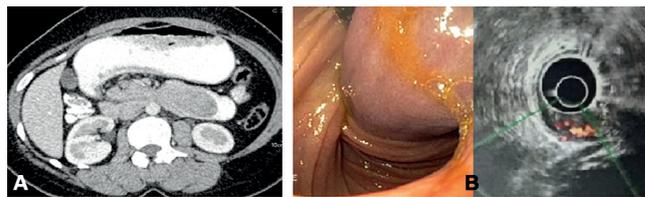
O adenoma da glândula de Brunner (Brunneroma ou hamartoma) é lesão benigna e rara das glândulas de Brunner, responsável por 10,6% dos tumores duodenais benignos<sup>10</sup>. É predominantemente visto nas 5<sup>a</sup> a 6<sup>a</sup> décadas e sem predileção de gênero<sup>13</sup>. É muitas vezes achado incidental durante esofagogastroduodenoscopia ou estudos de imagem. Em pacientes sintomáticos, as manifestações clínicas incluem sangramento gastrointestinal, obstrução duodenal, dor abdominal, obstrução ampular ou intussuscepção<sup>9,9</sup>. Dado seu potencial de ser confundido com câncer, é importante considerá-lo no diagnóstico diferencial das massas duodenais<sup>14</sup>. Como tem havido relatos de atipia celular focal e adenocarcinoma dentro da lesão, ressecção, seja endoscópica ou cirúrgica é recomendada para suspeita de Brunneroma<sup>3</sup>.

Relata-se aqui um caso de Brunneroma, apresentando-se como tumor estromal gastrointestinal (GIST) com intussuscepção em estudos radiológicos e endoscópicos e breve revisão da literatura.

## RELATO DO CASO

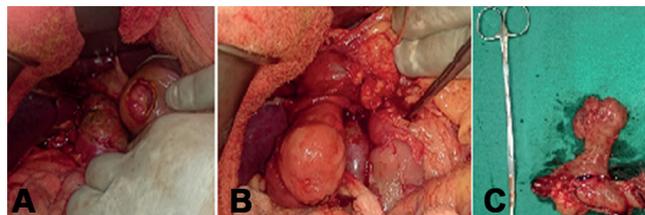
Mulher de 33 anos de idade apresentou desconforto epigástrico vago, fraqueza e falta de ar no esforço, 3-4 episódios de melena e episódios intermitentes de vômito não biliares desde 45 dias atrás. Seu exame físico geral revelou palidez. Abdome mostrou leve plenitude epigástrica. A hemoglobina foi de 6,7 g/dl. A contagem de leucócitos, testes de função hepática e renal estavam dentro dos limites normais. Ultrassonografia do abdome e pelve revelou uma massa sólida isoecóica bem definida no espaço intestinal, possivelmente na segunda parte do duodeno, de 4,4x3,0x2,7 cm. CT contrastada

(Figura 1A) revelou uma lesão polipoideira intraluminal na segunda porção do duodeno com espessamento leve da parede duodenal com poucos linfonodos subcentimétricos.



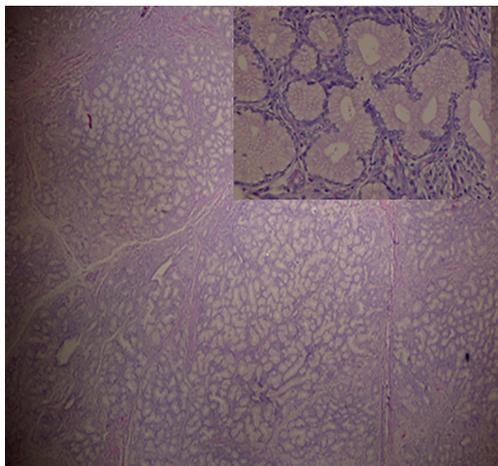
**FIGURA 1** - A) Imagem tomográfica mostrando uma lesão polipoide intraluminal na segunda porção do duodeno com espessamento de parede duodenal leve; B) endoscopia com EUS mostra uma grande lesão submucosa mista ecogênica de tamanho 4,0x2,8 cm com pedículo longo de 2 cm de espessura e artéria de alimentação no Doppler colorido que leva à intussuscepção duodenal

Endoscopia gastrointestinal alta com ultrassonografia endoscópica (EUS, Figura 1B) mostrou uma lesão submucosa mista ecogênica de 4,0x2,8 cm com um pedículo longo de 2 cm de espessura e uma artéria de alimentação no Doppler colorido, leva à intussuscepção duodenal e obstrução que se estendia além da segunda porção do duodeno. Foi diagnosticado como GIST com base em achados endoscópicos e EUS. A citologia ou biópsia com agulha fina no EUS não foi considerada necessária. A paciente foi planejada para a duodenectomia com preservação pancreática ou com pancreatoduodenectomia se a ampola estivesse envolvida. Houve transfusão de duas bolsas no pré-operatório.



**FIGURA 2** - Imagens intraoperatórias mostrando: A) duodenotomia na junção da primeira e segunda parte do duodeno, revelando a lesão; B) lesão exteriorizada do duodeno com pedículo com base no duodeno (instrumento aponta a ampola); C) espécime cirúrgico

Intraoperatoriamente (Figura 2) foi encontrada uma lesão de aproximadamente 4x3 cm no bulbo e segunda porção do duodeno com um pedículo de 5 cm de comprimento emergindo da parede posterior da primeira porção duodenal, estando a ampola hepatoduodenal a 3 cm distalmente à raiz do pedículo. Exame de congelação intraoperatória confirmou a lesão como brunneroma. Foi realizada piloroduodenectomia supra-ampular com gastrojejunostomia com Y-de-Roux. O espécime mostrou uma massa lobulada e polipóide de 4x3x3 cm projetando-se no duodeno. O pedículo era de 5,5x2,0 cm. O tumor foi completamente envolvido pela mucosa duodenal. A superfície era lisa e a consistência firme. Histopatologia (Figura 3) revelou proliferação lobular de glândulas benignas de Brunner, acompanhada por poucos ductos e elementos estromais dispersos, epitélio duodenal ulcerado na superfície e tecido de granulação focal. O centro do pedículo era fibrovascular com epitélio normal sobreposto. Não foi observada displasia ou malignidade. O paciente recuperou sem intercorrências e não apresentou sintomas durante o seguimento.



**FIGURA 3** - Histopatologia: proliferação lobular das glândulas de Brunner, acompanhada de poucos ductos e elementos estromais dispersos, epitélio duodenal de superfície ulcerada e tecido de granulação. A visão ampliada mostra as glândulas de Brunner

## DISCUSSÃO

As glândulas de Brunner são acinotubulares ramificadas localizadas principalmente no bulbo duodenal, duodeno proximal e, raramente no duodeno distal e jejuno proximal. Elas secretam um fluido alcalino que protege o epitélio duodenal do quimo ácido do estômago<sup>12</sup>. Brunner em 1688 descreveu-o como "pancreas secundarium". Em 1846, Middeldorp identificou-as como uma entidade separada. Salvioli relatou o primeiro Brunneroma em 1876<sup>4</sup>. Série de 27 pacientes com hamartoma da glândula Brunner localizou-o 70% no bulbo duodenal, 26% na segunda porção e 4% na terceira<sup>9</sup>. Neste caso ele estava na segunda porção duodenal com o pedículo na primeira.

Como o hamartoma da glândula de Brunner cresce não está claro. Os danos repetidos da mucosa ativam o reparo da mucosa, facilitando a proliferação acompanhada de metaplasia foveolar gástrica superficial. Estímulos mecânicos, infecção por *Helicobacter pylori* e ambiente hiperácido no duodeno também têm sido sugeridos, embora nenhum fato tenha sido comprovado até agora<sup>4</sup>.

É frequentemente achado incidental durante esofagogastroduodenoscopia ou estudos de imagem<sup>9</sup>. As apresentações mais comuns em pacientes sintomáticos são sangramento gastrointestinal (37%) e sintomas obstrutivos (37%)<sup>8</sup>. Em uma revisão de 27 casos, Levine et al. descobriram que a maioria dos pacientes tinham melena, anemia por deficiência de ferro com evidência de sangramento crônico<sup>9</sup>. Outros sintomas incluem dor abdominal, pancreatite, icterícia ou intussuscepção<sup>8,9</sup>.

A lesão deve ser diferenciada do adenoma, GIST, lipoma, tumor neurogênico, tecido pancreático aberrante e distrofia cística da parede duodenal<sup>14</sup>. O diagnóstico diferencial neste caso foi com GIST, como revelado por achados endoscópicos. A vascularização intensa e o pedículo longo foram a razão para rotular a lesão como GIST.

Endoscopicamente, a hiperplasia da glândula de Brunner aparece como nódulos submucosos na primeira ou segunda porção do duodeno. O ultrassom endoscópico mostra uma massa heterogênea, hipocogênica na camada submucosa<sup>11</sup>. No exame baritado, a hiperplasia da glândula de Brunner aparece como um ou mais nódulos pequenos no duodeno proximal e raramente com padrão em cobblestone ou queijo suíço. O diagnóstico diferencial inclui polipose adenomatosa familiar, síndrome de Peutz-Jeghers, hiperplasia linfóide nodular, heterotopia, tumores carcinóides e metástases<sup>5</sup>. Na TC, o hamartoma da glândula de Brunner tem sido descrito

como tendo ecogenicidade variável. Cistos múltiplos dentro do hamartoma podem produzir padrão mais heterogêneo; o homogêneo está correlacionado com achados histológicos de proliferação glandular. Por outro lado, o padrão de realce heterogêneo correlaciona-se com a descoberta da proliferação de gordura e de músculo liso, para além da proliferação glandular<sup>2,11</sup>.

A proliferação anormal das glândulas de Brunner é classificada como hiperplasia nodular difusa de tipo 1, com múltiplas projeções sésseis ao longo do duodeno; tipo 2, hiperplasia nodular circunscrita com projeções sésseis limitadas ao bulbo duodenal; e tipo 3, adenoma glandular com projeções semelhantes a tumores polipóides. Hiperplasia das glândulas de Brunner superiores a 1 cm é considerada adenoma da glândula de Brunner<sup>15</sup>.

Três a quatro relatos de casos dentre aproximadamente 150 relatados na literatura mostraram atipia celular e malignidade.

As opções de tratamento podem incluir ressecção endoscópica ou cirúrgica. A natureza benigna e a ausência de sintomas significativos tornam o tratamento endoscópico o tratamento inicial preferido. No entanto, se as intervenções endoscópicas falharem ou se houver um dilema diagnóstico, ou para lesões grandes, ou aqueles em quem há suspeita de malignidade cirúrgica, ressecção cirúrgica pode ser necessária<sup>7</sup>. Os resultados são bons, sem recorrências relatadas após a ressecção completa até o momento. Relatos ocasionais de pancreatoduodenectomia também foram relatados em vista de surpresa diagnóstica ou suspeita de malignidade<sup>6</sup>. Surpresa diagnóstica, de grande porte com um pedículo vascular e envolvimento da parede posterior duodenal, como neste caso, indicou piloroduodenectomia supra-ampular.

## REFERÊNCIAS

1. Akaki M, Taniguchi S, Hatakeyama K, Kushima R, Kataoka H. Duodenal mucosal damage is associated with proliferative activity of Brunner's gland hamartoma: a case report. *BMC Gastroenterology* 2014; 14:14
2. Block KP, Frick TJ, Warner TF. Gastrointestinal bleeding from a Brunner's gland hamartoma: characterization by endoscopy, computed tomography, and endoscopic ultrasound. *Am J Gastroenterol* 2000; 95:1581-1583
3. Brookes MJ, Manjunatha S, Allen CA, Cox M. Malignant potential in a Brunner's gland hamartoma. *Postgrad Med J* 2003; 79:416-417
4. Gao YP, Zhu JS, Zheng WJ. Brunner gland adenoma of duodenum: a case report and literature review. *World J Gastroenterol*. 2004; 10:2616-2617.
5. Gore RM, Levine MS. *Textbook of gastrointestinal radiology*, 2nd ed. Philadelphia, PA: Saunders, 2000: 593-595
6. Iusco D, Roncoroni L, Violi V, Donadei E, Sarli L. Brunner gland hamartoma: 'over-treatment' of a voluminous mass simulating a malignancy of the pancreatic-duodenal area. *JOP*. 2005; 6:348-353.
7. Janes SE, Zaitoun AM, Catton JA, Aithal GP, Beckingham JI. Brunner's gland hyperplasia at the ampulla of Vater. *J Postgrad Med* 2006; 52:38-40.
8. Kehl O, Bühler H, Stamm B, Amman RW. Endoscopic removal of a large, obstructing and bleeding duodenal Brunner gland adenoma. *Endoscopy*. 1985; 17:231-232.
9. Levine JA, Burgart LJ, Batts KP, Wang KK. Brunner gland hamartomas: clinical presentation and pathologic features of 27 cases. *Am J Gastroenterol*. 1995; 90: 290-294.
10. Matsumoto T, Iida M, Matsui T, Yao T, Fujishima M. A large Brunner's gland adenoma removed by endoscopic polypectomy. *Endoscopy* 1990; 22: 192-193
11. Matsushita M, Takakuwa H, Nishio A. Endosonographic features of Brunner's gland hamartoma: location within the fourth echolayer? *Am J Gastroenterol* 2001; 96:1302-1303
12. Mayoral W, Salcedo JA, Montgomery E, Al-Kawas FH. Biliary obstruction and pancreatitis caused by Brunner gland hyperplasia of the ampulla of Vater: a case report and review of the literature. *Endoscopy*. 2000; 32:998-1001.
13. Nakanishi T, Takeuchi T, Hara K, Sugimoto A. A great Brunner's gland adenoma of the duodenal bulb. *Dig Dis Sci* 1984; 29: 81-85
14. Walden DT, Marcon NE. Endoscopic injection and polypectomy for bleeding Brunner's gland hamartoma: case report and expanded literature review. *Gastrointest Endosc* 1998; 47:403-407
15. Zangara J, Kushner H, Drachenberg C, Daly B, Flowers J, Fantry G. Iron deficiency anemia due to a Brunner gland hamartoma. *J Clin Gastroenterol*. 1998; 90:353-356.