

Dacriops de Krause (quiste ductal de glándula lagrimal accesoria). Reporte de un caso y revisión bibliográfica

Miguel Fernando Salazar-Morales,* María del Rocío Estrada-Hernández,** Rubén López-Oliver,***
Abelardo Rodríguez-Reyes****

RESUMEN

Hombre de 22 años con lesión en cavidad orbitaria izquierda de crecimiento paulatino y sensación de molestia con 10 meses de evolución. En la División de Anatomía Patológica se recibió un espécimen ovoide de $4 \times 2.5 \times 2$ cm que al corte tuvo múltiples cavidades de pared lisa. Histológicamente los quistes estaban recubiertos por epitelio cúbico dispuesto en una o dos capas con presencia de secreción apical apocrina. La pared presentaba focos de inflamación crónica.

El dacriops, también llamado quiste ductal de glándula lagrimal, es una entidad poco frecuente en cuya patogénesis parecen ser necesarios dos mecanismos: el obstructivo y la aparición de un gradiente osmótico, pudiendo ser ambos consecuencia de un fenómeno de naturaleza inflamatoria. La localización de la lesión puede ser a nivel de la glándula lagrimal mayor o en las glándulas accesorias de Wolfring o Krause. El diagnóstico de esta entidad es eminentemente anatómico e histológico.

Palabras clave: dacriops, quiste ductal lagrimal, glándula de Wolfring, glándula de Krause, secreción apical apocrina.

ABSTRACT

A 22 year old man presented with a left orbital lesion of insidious growth during 10 months and comfortless sensation. Pathologic Anatomy Division received an ovoid lesion of $4 \times 2.5 \times 2$ cm which had multiple cavities of smooth wall at cut. Histologically the cysts were covered by cubic epithelium disposed in a single or double layer with a distinctive apocrine apical secretion. Chronic inflammation foci were identified in the wall.

Dacryops, also known as lacrimal duct cyst, is a rare entity with a two-step pathogenesis: the development of an osmotic gradient and an obstruction, both of them a consequence of an inflammatory process. The lesion can appear at the site of major lacrimal gland or at the accessory glands of Wolfring or Krause. Diagnosis is based on anatomical and histological findings.

Key words: dacryops, lacrimal duct cyst, Wolfring gland, Krause gland, apocrine apical secretion.

- * Residente de 1.º año de Anatomía patológica Hospital General Dr. Manuel Gea González.
** Médico adscrito a la División de Anatomía Patológica Hospital General Dr. Manuel Gea González.
*** Jefe del Servicio de Cirugía de Órbita División de Oftalmología Hospital General Dr. Manuel Gea González.
**** Jefe del Servicio de Patología, Asociación Para Evitar La Ceguera en México IAP, Hospital Dr. Luis Sánchez Bulnes.

Correspondencia: Dr. Miguel Fernando Salazar Morales. Correo electrónico: k7nigricans@hotmail.com

Este artículo debe citarse como: Salazar-Morales MF, Estrada-Hernández MR, López-Oliver R, Rodríguez-Reyes A. Dacriops de Krause (quiste ductal de glándula lagrimal accesoria). Reporte de un caso y revisión bibliográfica. Patología Rev Latinoam 2013;51(1):29-33.

CASO CLÍNICO

Hombre de 22 años de edad con antecedente de enucleación secundaria a microftalmia congénita izquierda con colocación de prótesis en el 2005. Acudió a consulta por aumento progresivo de volumen y sensación de molestia. En la exploración física se identifica una lesión en la porción superior de la cavidad orbitaria, a nivel del fondo de saco, cubierta por conjuntiva tarsal (figura 1).

Características macroscópicas

En la división de anatomía patológica se recibe una pieza quirúrgica irregularmente ovoide, que mide $4 \times 2.5 \times 2$ cm,



Figura 1. Fotografía clínica de la lesión.

de superficie externa color café claro, anfractuosa y brillante con una solución de continuidad de 0.5 cm y escaso tejido adiposo periférico (figura 2). Al corte hay salida de escaso líquido seroso y la cavidad interna presenta múltiples quistes de paredes lisas (figura 3).



Figura 2. Superficie externa con una solución de continuidad ocasionada durante el retiro del quiste.



Figura 3. Al corte se evidencian múltiples compartimentos (multiloculado).

Características microscópicas

En los cortes histológicos teñidos con hematoxilina y eosina (HyE) se identifica una lesión con múltiples cavidades (figura 4) cuyas paredes están recubiertas por células cúbicas dispuestas en una o dos capas con evidencia de secreción apical apocrina (secreción por decapitación) (figura 5). Además hay focos donde el epitelio sufre aplastamiento o poliestratificación (figura 6).

La inmunohistoquímica (IHQ) muestra positividad para antígeno epitelial de membrana (EMA), citoqueratina 7 (CK-7) y lisozima (figura 7), así como para inmunoglobulina A (IgA) (figura 8).

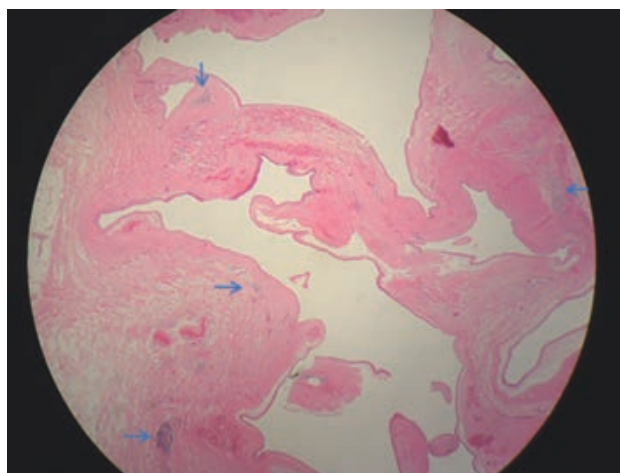


Figura 4. Aspecto panorámico de la lesión con múltiples espacios separados por septos gruesos de tejido fibroconectivo con cúmulos focales de inflamación crónica.

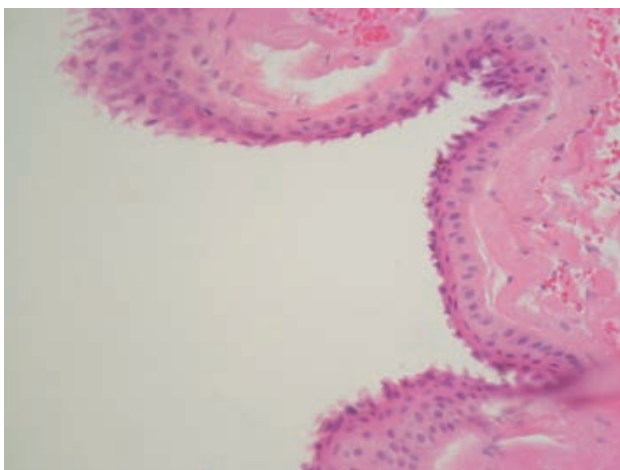


Figura 5. Acercamiento identificando un recubrimiento de epitelio cúbico en dos o más capas con evidencia de secreción apical apocrina (secreción por decapitación).

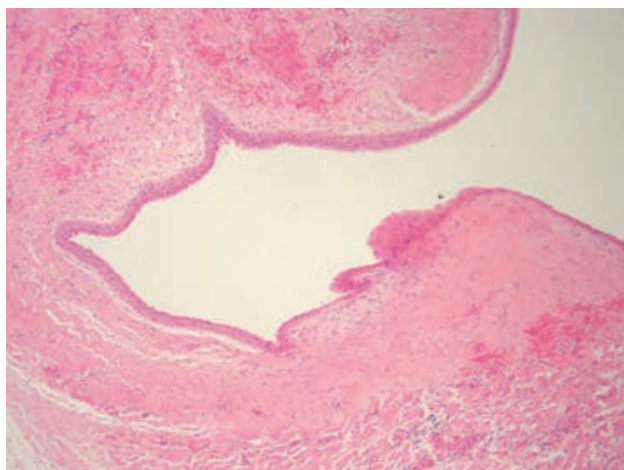


Figura 6. Segmento con variación en el tipo de epitelio: de plano simple a cúbico simple o estratificado.

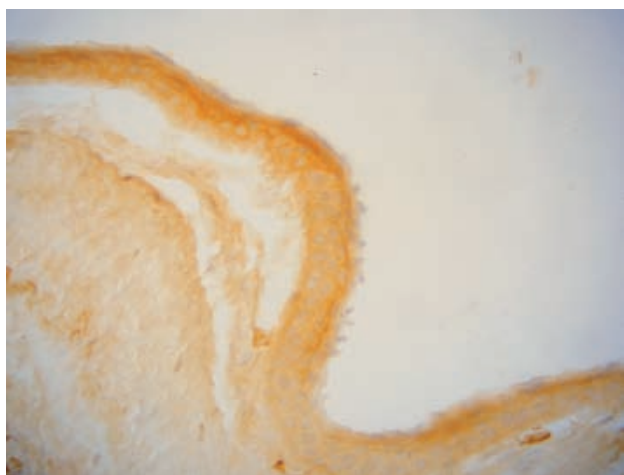


Figura 7. La positividad para lisozima evidencia el origen glandular del quiste, el cual parece depender del tejido lagrimal.

DISCUSIÓN

El quiste ductal de la glándula lagrimal (dacriops) es considerado como una lesión poco frecuente que representa cerca de 1% de los tumores orbitarios.^{1,2} Cuando involucra una de las glándulas lagrimales accesorias (Wolfring o Krause) la entidad es aún más rara pues, al haber pocos casos reportados en la literatura, su incidencia es poco conocida.^{2,3}

Anatómicamente el tejido lagrimal se encuentra constituido por una glándula mayor y dos accesorias: la primera se encuentra localizada sobre el borde anterior superoex-

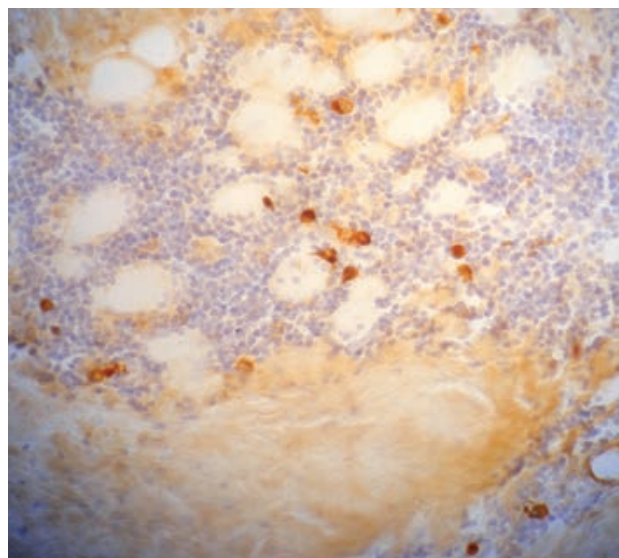


Figura 8. Inmunohistoquímica: células plasmáticas positivas para IgA.

terno de la órbita, mientras que las otras dos se sitúan en el borde del tarso superior (Wolfring) y en el fondo de saco conjuntival (Krause)² (figura 9). También pueden existir restos glandulares ectópicos.

Así pues, en nuestro caso es complicado determinar la procedencia de la lesión debido a sus características de tamaño y profundidad, sin embargo, el asiento del quiste por debajo de la conjuntiva del fondo de saco y no inmediatamente sobre el borde tarsal, resulta ser un dato muy orientativo para pensar en la glándula de Krause como el sitio de origen.

Clásicamente la histología de un dacriops se describe como un epitelio columnar o cúbico dispuesto en una dos capas con cambios apicales de secreción apocrina, el cual puede presentar células caliciformes y mioepiteliales así como focos de aplanamiento o estratificación epitelial.^{1-3,6-8} También se suelen advertir cúmulos de linfocitos a nivel mural.¹⁻³

En nuestro caso los cortes histológicos teñidos con HyE exhiben la naturaleza multiloculada de la lesión (figura 4), característica evidente desde el nivel macroscópico (figura 3). En segundo lugar, se identifica un epitelio de recubrimiento polimorfo, con plano simple, cúbico simple y cúbico con diversos niveles de estratificación (figura 6). La secreción por decapitación (secreción apical apocrina) se observa en las áreas tapizadas por epitelio cúbico independientemente del número de estratos (figura 5).

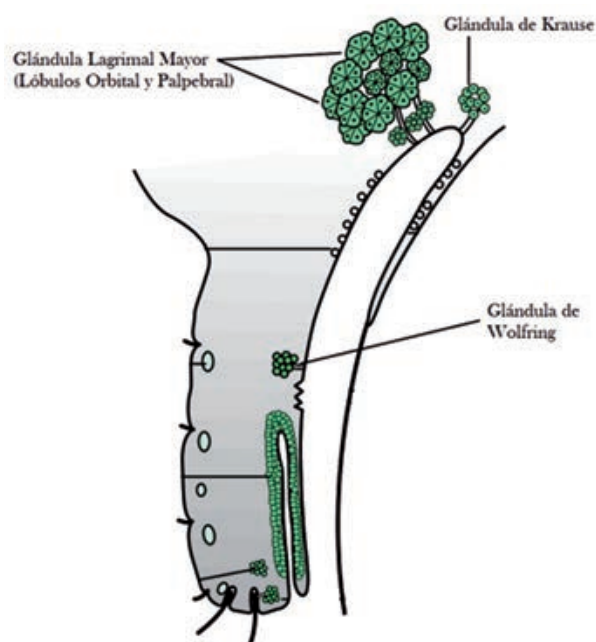


Figura 9. Corte sagital del párpado superior: ubicación de la glándula lagrimal principal y de las glándulas accesorias de Wolfring y Krause. Modificado de las referencias 4 y 5.

No se advirtieron células caliciformes ni mioepiteliales, mismas que, de acuerdo con la bibliografía, son mucho más comunes de observar cuando la lesión proviene de la porción más distal de los conductos.^{8,9}

Los estudios de inmunohistoquímica para EMA y CK-7 evidencian la naturaleza ductal de la lesión, en tanto que la presencia de lisozima en el epitelio secretor sustenta al tejido lagrimal como sitio de origen (figura 7).

En general, se ha especulado mucho acerca del proceso de patogénesis de la lesión, siendo el mecanismo más sencillo el bloqueo mecánico. Por otro lado, hay evidencia experimental de que la obliteración ductal no conduce siempre a una dilatación progresiva sino que culmina en atrofia.¹ Los conductos lagrimales son un sistema excretor de baja presión,¹ razón por la cual una simple obstrucción resulta insuficiente para explicar la formación del quiste ductal. En cambio, si se toma en cuenta un paso adicional, como un cambio hipersecretor, la dilatación se torna mucho más factible.^{1,6,7} Al respecto, se encuentran documentadas algunas observaciones que pueden resultar relevantes:

- I. Que, a pesar de su baja incidencia, el dacriops es una afección mucho más común en las zonas endémicas

de tracoma.^{2,3} *Chlamydia trachomatis* ocasiona un cuadro en cuya fase terminal hay fibrosis conjuntival con aparición de deformidades palpebrales. Así pues, esta cicatrización postinflamatoria bien puede condicionar dilatación ductal retrógrada.

- II. Que exista asociación entre agentes relacionados con hipertrofia glandular e inflamación periductal (etanol en específico) y el desarrollo de dacriops.¹
- III. Su posibilidad de aparición en una enfermedad autoinmune como el síndrome de Sjögren, la enfermedad de Mikulicz, sarcoidosis o en enfermedades linfoproliferativas.²
- IV. La asociación reportada con traumatismos oculares.^{1,2,7}

Estas razones han llevado a postular que la lesión aparece dentro de un contexto inflamatorio y que el secuestro de líquido estaría condicionado por un gradiente osmótico generado por la acumulación de IgA en el fluido quístico,^{6,10-13} misma que sería hipersecretada por células plasmáticas localizadas por debajo del epitelio. Las paredes del quiste presentan varios cúmulos inflamatorios (figura 4) con cantidades variables de células plasmáticas. El estudio de inmunohistoquímica permitió demostrar que la inmunoglobulina producida por éstas era del tipo IgA (figura 8).

Asimismo, la proximidad existente entre algunos agregados linfoides con el epitelio secretor apocrino (figura 10) orilla a pensar en la presencia de una vía de transición. Dicho mecanismo se pone en evidencia a través de la IHQ contra IgA que tiñe al recubrimiento epitelial

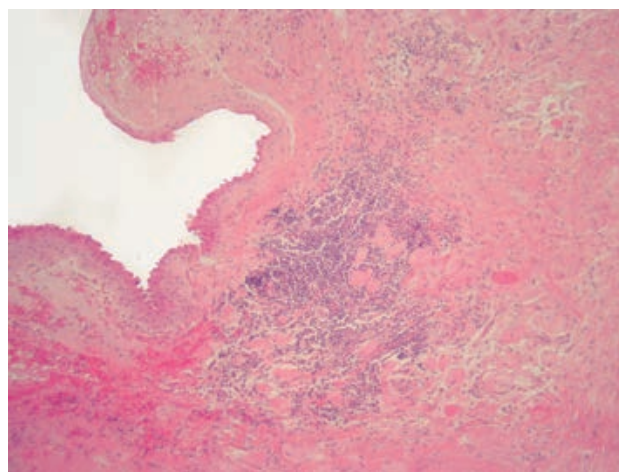


Figura 10. Algunos cúmulos linfoides se encuentran cerca del epitelio con cambio secretor. La importancia de este hallazgo radica en que hace posible la existencia de un proceso activo de transición para el paso de inmunoglobulina hacia el lumen de la lesión.

en todo su espesor y con mayor intensidad en la porción apical (figura 11).

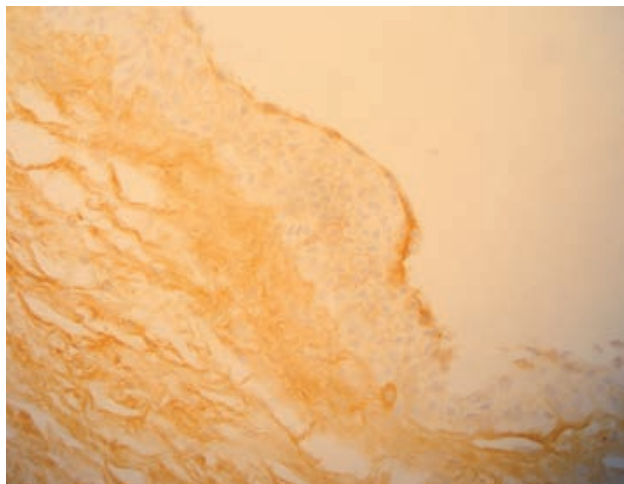


Figura 11. La localización de esta inmunoglobulina no se limita a las células plasmáticas, también se halla en la porción apical del epitelio secretor.

CONCLUSIÓN

El dacriops, también denominado quiste ductal de glándula lagrimal, es una afección poco frecuente en cuya patogénesis se encuentra involucrada una obstrucción mecánica que aparece dentro de un contexto de naturaleza inflamatoria, mismo que promueve una hipersecreción de IgA hacia la luz que culmina en la acumulación de fluido con formación de una cavidad.

Al ser una lesión dependiente de tejido glandular lagrimal su asiento puede ser en la glándula lagrimal mayor, en las accesorias de Wolfring o Krause, así como en restos ectópicos. El epitelio de recubrimiento suele ser cúbico con cambios apicales de secreción apocrina. La presencia de células caliciformes y mioepiteliales en el mismo depende de la proximidad de la lesión, siendo

más comunes de encontrar cuando el quiste deriva de la porción ductal terminal.

Así pues, el diagnóstico de dacriops es eminentemente histológico y anatómico.

REFERENCIAS

1. Llorente PS, Dos Santos BV, De Vicente RJC, et.al. Dacriops en paciente afectado por cirrosis hepática de origen alcohólico. En: <http://www.oftalmo.com/studium/studium1999/stud99-3/99c10.htm>
2. Khoury NJ, Haddad MC, Tawil AN, et.al. Ductal cyst of the accessory lagrimal glands: CT findings. *Am J Neuroradiol* 1999;20:1140-1142.
3. Hassany S. Wolfring dacriops. *Saudi Journal of Ophthalmology* 2004;18:121-123.
4. Aparato lagrimal. Disponible en: <http://elsentidodelavision.blogspot.com/2008/10/aparato-lagrimal.html>
5. Gland. Disponible en: <http://medical-dictionary.thefreedictionary.com/Wolfring+g%27s>
6. Kyung IW, Yoon-Duck K. Cyst of accesory lagrimary gland. *Korean J Ophthalmol* 1995;9:117-121.
7. Tsiouris AJ, Deshmukh M, Sanelli PC, et.al. Bilateral dacriops: correlation of clinical, radiologic and histopathologic features. *AJR* 2005;184:321-323.
8. Klintworth GK, Cumming TJ. Lacrimal drainage apparatus. En: Mills SE *Histology for pathologists*. 3rd edition 2007 Lippincott Williams & Wilkins. Chapter 13 Normal Eye and Ocular Anexa. pp. 366-370.
9. Font RL, Croxatto JO, Rao NA. Lacrimal gland cysts. En: Font RL, Croxatto JO, Rao NA. *AFIP Atlas of tumor pathology. Tumors of the eye and ocular adnexa. Fourth series fascicle five* 2006 ARP Press. Chapter 6 Tumors of the lacrimal gland. p. 241.
10. Jakobiec FA, Bhat P, Kropp TM. Palpebro-orbital apocrine cystadenoma: immunohistochemical verification of a unique variant with a critical differential diagnosis. *Ophthal Plast Reconstr Surg* 2010;26(4):245-9.
11. Brooks GF, Butel JS, Morse SA. Chlamydia trachomatis ocular, genital & respiratory infections. En: Brooks GF, Butel JS, Morse SA. Jawetz, Melnick & Adelberg's *Medical Microbiology*. 23rd edition 2004 McGraw-Hill. Chapter 28 Chlamydiae. pp 360-361.
12. Woo KI, Kim YD. Cyst of accessory lacrimal gland. *Korean J Ophthalmol* 1995;9(2):117-21.
13. Weatherhead RG. Wolfring dacryops. *Ophthalmology* 1992;99(10):1575-81.