

Neuroma traumático de la vía biliar asociado a hepatolitiasis como causa de ictericia obstructiva: a propósito de un caso

A. Cascón, P. Talavera, L. Díez, A. Sánchez, A.J. Torres y J.L. Balibrea
II Cátedra de Cirugía. Hospital Clínico San Carlos. Madrid.

Resumen

Los neuromas de amputación de la vía biliar son lesiones poco frecuentes. La mayoría de los casos descritos asientan en el muñón del conducto cístico tras colecistectomía, incluso por vía laparoscópica. Otras causas menos frecuentes de neuromas son la cirugía reconstructiva de la vía biliar, o aquellos que se presentan en ausencia de cirugía. Por otra parte, la presencia de cálculos en la vía biliar intrahepática (hepatolitiasis) es una entidad poco frecuente en el mundo occidental.

Presentamos el caso de un paciente con un neuroma en la confluencia de ambos conductos hepáticos, que había sido sometido a colecistectomía 11 años antes. Esta lesión le estaba ocasionando un cuadro de ictericia obstructiva. Fue reintervenido, realizándose una extracción de cálculos de los conductos hepáticos, así como una extirpación de una lesión fibrosa en la unión de los conductos. Se efectuó una reconstrucción mediante anastomosis hepaticoyunal. El análisis histológico confirmó la presencia de un neuroma postraumático de la vía biliar. Nueve meses después de la cirugía el paciente se encuentra asintomático y con buen estado general.

Palabras clave: Neuroma vía biliar. Hepatolitiasis. Tratamiento quirúrgico.

(*Cir Esp* 2001; 69: 604-606)

TRAUMATIC NEUROMA OF THE BILIARY TREE ASSOCIATED WITH HEPATOLITHIASIS AS A CAUSE OF OBSTRUCTIVE JAUNDICE: A CASE REPORT

Amputation neuroma of the biliary tree is a rare lesion. Most reported cases are of neuroma of the cystic duct stump after cholecystectomy. Traumatic neuroma has less frequently been associated with reconstructive surgery of the biliary tree or in the absence of previous surgery. Hepatolithiasis is uncommon in western countries. We report the case of neuroma of the junction of the right and left hepatic ducts arising 11 years after cholecystectomy. The patient, a 59-year-old man, was admitted for obstructive jaundice. He underwent removal of intrahepatic stones, resection of a strictured part of the junction of the hepatic duct and hepaticojunostomy. Histological examination confirmed traumatic neuroma of the biliary tract. The patient remains well 9 months after the surgical procedure.

Key words: Neuroma of the biliary tract. Hepatolithiasis. Surgical treatment.

Introducción

Cualquier nervio, recubierto por células de Schwann, que haya sufrido una solución de continuidad puede ser susceptible de generar un neuroma traumático. El tracto biliar presenta una rica inervación, de manera que pueden surgir este tipo de lesiones ante cualquier manipulación quirúrgica de dicha vía biliar. La mayoría de los neuromas biliares son asintomáticos¹⁻¹⁶. Cuando aparece un cuadro clínico, éste se produce por obstruc-

ción de la vía biliar y se manifiesta, sobre todo, en forma de dolor, evidenciándose ictericia en un menor número de casos. Aunque la relación entre la presencia de hepatolitiasis y el posible desarrollo de colangiocarcinomas, hasta un 10% en algunas series, es un hecho perfectamente documentado¹⁷⁻²¹, no hemos encontrado ningún trabajo referente a la asociación entre neuromas de la vía biliar y hepatolitiasis.

Caso clínico

Se trata de un paciente de 59 años de edad, con antecedentes personales de hepatopatía crónica y hernia de hiato al que se le realizó una colecistectomía por colelitiasis en 1987.

Acude al hospital en junio de 1998 con un cuadro de dolor epigástrico, ictericia, acolia y febrícula. La analítica al ingreso reflejaba una situación de colestasis con clara elevación de la

Correspondencia: Dr. A. Cascón.
Servicio de Cirugía II (3.ª planta). Ala Sur.
Hospital Clínico San Carlos.
Martín Lagos, s/n. 28040 Madrid.

Aceptado para su publicación en octubre del 2000.

bilirrubina, la fosfatasa alcalina y la gammaglutamil transferasa. Se realizó una TC abdominal, que evidenciaba una discreta dilatación de la vía biliar intrahepática. La colangiopancreatografía retrógrada endoscópica (CPRE) revelaba una estenosis filiforme en la unión de ambos conductos hepáticos con dilatación preestenótica.

Ante estos hallazgos, y con el juicio clínico de ictericia obstructiva, se decide un tratamiento quirúrgico programado. Se realizó una laparotomía media y una exploración de la cavidad abdominal, apreciándose una estenosis prácticamente completa en la unión de ambos conductos hepáticos; tras la apertura del conducto hepático común y la extracción de varios cálculos de la vía biliar intrahepática mediante endoscopia intraoperatoria, se procedió a resecar la zona estenosada, que fue informada en ese momento como neuroma postraumático de la vía biliar. La reconstrucción del tracto biliar se llevó a cabo mediante anastomosis hepaticoyeyunal terminolateral manual monoplano en "Y" de Roux. Se procedió a cerrar la incisión tras dejar un drenaje aspirativo perianastomótico.

El paciente fue dado de alta a los 28 días de la cirugía. La anatomía patológica definitiva ofreció unos resultados semejantes a los obtenidos en el estudio intraoperatorio.

Discusión

Los neuromas traumáticos o de amputación son lesionesseudotumorales consistentes en conglomerados de axones neoformados, recubiertos por abundante cantidad de tejido fibroso. Así pues, constituyen un intento de regeneración de un nervio previamente seccionado²⁰.

La incidencia de estas lesiones, tras colecistectomía, oscila entre un 18 y un 27%²¹; no obstante, la mayoría cursan de forma asintomática. La primera referencia en la bibliografía corresponde a Comfort y Walters, en 1931⁷. Aunque hay autores que atribuyen el dolor del síndrome poscolecistectomía a la aparición de neuromas traumáticos del muñón del conducto cístico, esta asociación es hoy día discutible^{16,22,23}.

La aparición de los neuromas biliares podría verse disminuida realizando una cuidadosa disección de las fibras nerviosas simpáticas del conducto cístico antes de su ligadura⁶. Por otro lado, la irritación provocada por la salida de bilis o por el calor del bisturí eléctrico podría ejercer algún papel en el desarrollo de estos neuromas.

En la etiopatogenia de los neuromas biliares diagnosticados en ausencia de intervenciones quirúrgicas previas, podría verse implicada una elevada concentración de colesterol en la bilis, la cual serviría de estímulo para la proliferación fibrosa neuronal constitutiva de este tipo de lesiones¹⁵.

El período de tiempo transcurrido entre la colecistectomía y el diagnóstico del neuroma biliar puede variar entre pocos meses y varios años, como ocurrió en nuestro paciente, habiéndose descrito casos diagnósticos incluso hasta 19 años después⁹.

Las hepatolitiasis, según se presenten de forma aislada o asociadas a la presencia de cálculos en la vesícula y/o vía biliar extrahepática, pueden dividirse en primarias o secundarias, respectivamente, siendo aquéllas más frecuentes en el sudeste asiático y predominando estas últimas en el mundo occidental. Hay trabajos que hacen referencia de hasta un 8% de cálculos intrahepáticos en pacientes con colelitiasis²⁴. Asimismo, existirían una serie de factores determinantes para la formación de cálculos en la vía biliar intrahepática: en las formas primarias

estarían implicadas las enfermedades hemolíticas y aquellos procesos que produzcan estasis biliar (estenosis ductales intrahepáticas, colangitis esclerosante o anomalías congénitas del árbol biliar intrahepático, como la enfermedad de Caroli). El paso de cálculos originados en la vesícula a través de un conducto cístico dilatado, y su posterior migración retrógrada hacia la vía biliar intrahepática, constituiría el elemento etiopatogénico fundamental de las hepatolitiasis secundarias²⁵.

La importancia de estas lesiones litiasicas intrahepáticas radicaría en los múltiples y, a su vez, graves cuadros clínicos que pueden llegar a generar (colangitis supurativa, cirrosis biliar que degenera a hipertensión portal con varices esofágicas sangrantes y fallo hepático progresivo, septicemia), además del ya citado desarrollo de procesos neoformativos malignos de la vía biliar²⁶. La complicación más frecuente tras el tratamiento quirúrgico de las hepatolitiasis es la persistencia de cálculos residuales ya que, aun con la introducción de la coledoscopia intra y postoperatoria, su incidencia oscila entre un 10 y un 30%, según las distintas series²⁷⁻²⁹.

El interés de este caso radica en el diagnóstico preoperatorio de ictericia obstructiva de etiología no filiada, que obliga a realizar un tratamiento quirúrgico de forma programada, evidenciándose de forma intraoperatoria una lesión estenosante en la confluencia de ambos conductos hepáticos, así como una hepatolitiasis no diagnosticada previamente mediante pruebas de imagen. Si bien no es frecuente la presencia de cálculos en la vía biliar intrahepática tras una colecistectomía previa y dado que no disponemos de datos suficientes que permitan asegurar una relación causa-efecto entre el neuroma de la vía biliar y la hepatolitiasis, lo cierto es que nos encontramos ante dos entidades clínicas distintas en el mismo acto operatorio, estando obligados a realizar un tratamiento quirúrgico resolutivo de ambas (extracción de cálculos y drenaje de la vía biliar).

Por tanto, podemos concluir que los neuromas traumáticos de la vía biliar son lesiones, generalmente asociadas a intervenciones biliares previas, que suelen cursar de forma asintomática, aunque pueden ser causa de ictericia obstructiva que obligue a un diagnóstico diferencial con procesos neoformativos malignos. Así pues, para llegar a un correcto diagnóstico y evitar complicaciones futuras, debe plantearse un tratamiento quirúrgico programado ante todo neuroma de la vía biliar asociado o no a hepatolitiasis, con el fin de conseguir un drenaje satisfactorio de esta vía. Su evolución, tras escisión quirúrgica, es satisfactoria en la mayoría de los casos, si bien no podemos olvidar la necesidad de un adecuado seguimiento postoperatorio de estos pacientes, dado el elevado índice de recidivas a pesar de un correcto tratamiento quirúrgico.

Bibliografía

1. Larson DM, Storsteen KA. Traumatic neuroma of the bile ducts with extrahepatic extension causing obstructive jaundice. *Hum Pathol* 1984; 15: 287-289.
2. Christensen AH, Ishak KG. Benign tumors and pseudotumors of the gallbladder. *Arch Pathol* 1970; 90: 423-432.
3. Hochain P, Duranton Y, Manchon ND, Peillon C, Metayer J, Michot F et al. Neurome du choledoque: une cause rare d'ictère. *Gastroenterol Clin Biol* 1988; 12: 576-578.
4. Bartlett MK, McDermott WV. Amputation neuroma of the bile ducts with obstructive jaundice. *N Engl J Med* 1954; 251: 213-216.
5. Catell MD, St. Ville J. Amputation neuromas of the biliar tract. *Arch Surg* 1961; 83: 242-246.
6. Hume RH, Buxton RW. Postcholecystectomy amputation neuroma. *Am Surg* 1954; 20: 698-708.

7. Comfort MW, Walters W. Intermittent jaundice due to neuroma of cyst and common bile ducts. *Ann Surg* 1931; 93: 1142-1145.
8. Stenbridge VA. Amputation neuroma following cholecystectomy. *Ann Surg* 1951; 134: 1048-1051.
9. Takahara N, Saito S, Yoshida M, Oshima S, Okayasu J. A case of amputation neuroma of the biliary tract with obstructive jaundice. *Gastroenterol Japonica* 1981; 16: 521-526.
10. Kopolovic J, Rivkind A, Rabinovici R, Klin B, Eyal Z. Amputation neuroma of common bile duct with obstructive jaundice a case report. *Appl Pathol* 1984; 2: 292-294.
11. Nagata Y, Tomioka T, Chiba K, Kanematsu T. Traumatic neuroma of the common hepatic duct after laparoscopic cholecystectomy. *Am J Gastroenterol* 1995; 90: 1887-1888.
12. Van Gulik TM, Brummelkamp WH, Lygidakis NJ. Traumatic neuroma giving rise to biliary obstruction after reconstructive surgery for iatrogenic lesions of the biliary tract. A report of three cases. *Hepatogastroenterol* 1989; 36: 255-257.
13. Toshiaki S et al. Polypoid traumatic neuroma of the gallbladder. *Arch Pathol Lab Med* 1985; 109: 574-576.
14. Elhag AM, Al Awadi NZ. Amputation neuroma of the gallbladder. *Histopathology* 1992; 21: 586-587.
15. Peison B, Benisch B. Traumatic neuroma of the cyst duct in the absence of previous surgery. *Human Pathol* 1985; 16: 1168-1169.
16. Berge T, Haeger K. Clinical significance of the amputation neuroma and length of the cystic duct remnant. *Acta Chir Scand* 1967; 133: 55.
17. Nakayama F, Koga A. Hepatolithiasis: present status. *World J Surg* 1984; 8: 9-14.
18. Lee KT, Sheen PC, Tsai CC, Chen JS, Ker CG. Long-term results of one hundred and seven hepatic resections for intrahepatic stones. *Dig Surg* 1992; 19: 298-302.
19. Chijiwa K, Kameoka N, Komura M, Yamasaki T, Noshiro H, Nakano K. Hepatic resection for hepatolithiasis and long-term results. *J Am Coll Surg* 1995; 180: 43-48.
20. Reed RJ, Harkin JC. Tumorous dysplasia and hyperplasia of axons. En: *Tumors of the peripheral nerve system (supplement)*. Washington: Armed Forces Institute of Pathology, 1983; S6-S10.
21. Rush BF, Stefaniwsky AB, Sasio A et al. Neuroma of the common bile duct. *J Surg Oncol* 1988; 39: 17-21.
22. Zeff RH, Pfeffer RB, Adams PX et al. Re-operation for amputation neuroma of the cystic duct. *Am J Surg* 1976; 131: 369.
23. Trippoli DV, Cella LJ. The post cholecystectomy syndrome. *Ann Surg* 1953; 137: 250.
24. Best RR. The incidence of liver stones associated with cholelithiasis and its clinical significance. *Surg Gynecol Obstet* 1944; 78: 425-428.
25. Pausawasdi A, Watanapa P. Hepatolithiasis: epidemiology and classification. *Hepatogastroenterol* 1997; 44: 314-316.
26. Kuo-Shyang J. Treatment of intrahepatic biliary stricture associated with hepatolithiasis. *Hepatogastroenterol* 1997; 44: 342-351.
27. Sato T, Suzuki N, Takahashi W, Vematsu I. Surgical treatment of intrahepatic stones. *Ann Surg* 1980; 192: 28-32.
28. Fan ST, Choi TK, Lo CM, Mok FPT, Lai ECS, Wong J. Treatment of hepatolithiasis, improvement of result by a systemic approach. *Surgery* 1991; 109: 474-480.
29. Birkette DH, Williams LF. Choledochoscopic removal of retained stones via a T-tube tract. *Am J Surg* 1980; 139: 531-534.