



Pseudoaneurisma de arteria hepática derecha secundario a colecistitis

Right hepatic artery pseudoaneurysm due to cholecystitis

Los aneurismas espláncnicos son infrecuentes, su incidencia estimada es del 0,1-2%. Los más comunes son los de arteria esplénica (60%), seguidos de los de arteria hepática (AH) (20%). Los aneurismas de AH son principalmente extrahepáticos (75-80%) y afectan a la arteria hepática común (63%), siendo menos habituales los de sus ramas (23% arteria hepática derecha [AHD], 5% arteria hepática izquierda, 4% bilateral)¹.

La principal causa de aneurismas verdaderos es la aterosclerosis¹⁻³, sin embargo, el porcentaje de pseudoaneurismas aumenta por la generalización de técnicas percutáneas y endoscópicas, siendo poco habitual su desarrollo secundario a procesos inflamatorios y/o infecciosos²⁻⁸. Al contrario que los aneurismas, los pseudoaneurismas crecen relativamente rápido, siendo importante su diagnóstico y tratamiento temprano.

Presentamos un caso de pseudoaneurisma de AHD (PAAHD) secundario a colecistitis:

Se trata de una mujer asiática de 46 años, con antecedentes de cólicos biliares manejados con medicina tradicional China.

Consultó por dolor abdominal y melenas. A la exploración presentaba molestias a la palpación en mesogastrio, sin peritonismo. Analíticamente presentaba anemia, transaminasas levemente elevadas y discreta neutrofilia sin leucocitosis.

El score de Glasgow-Blatchford⁹ mostró un riesgo elevado de hemorragia digestiva alta (10 puntos). Se realizó gastroscopia, sin objetivarse datos de hemorragia activa, y tomografía computarizada (TC), con hallazgo de colecistopatía crónica litiasica reagudizada. Transcurridas 48 h presentó rectorragia con necesidad transfusional, evidenciándose por angio-TC una fistula colecistocólica sin datos de hemorragia activa (fig. 1A). Al sexto día de ingreso, ante inestabilidad hemodinámica, se repitió la angio-TC, que mostró hemorragia activa intravesicular (fig. 1B). Se indicó arteriografía urgente, objetivándose un PAAHD (fig. 1C) que se embolizó con coils (fig. 1D). Posteriormente, una nueva TC confirmó la exclusión del pseudoaneurisma y la correcta perfusión hepática bilateral. La funcionalidad hepática se mantuvo estable, con ausencia de alteraciones analíticas en cuanto a cifras de

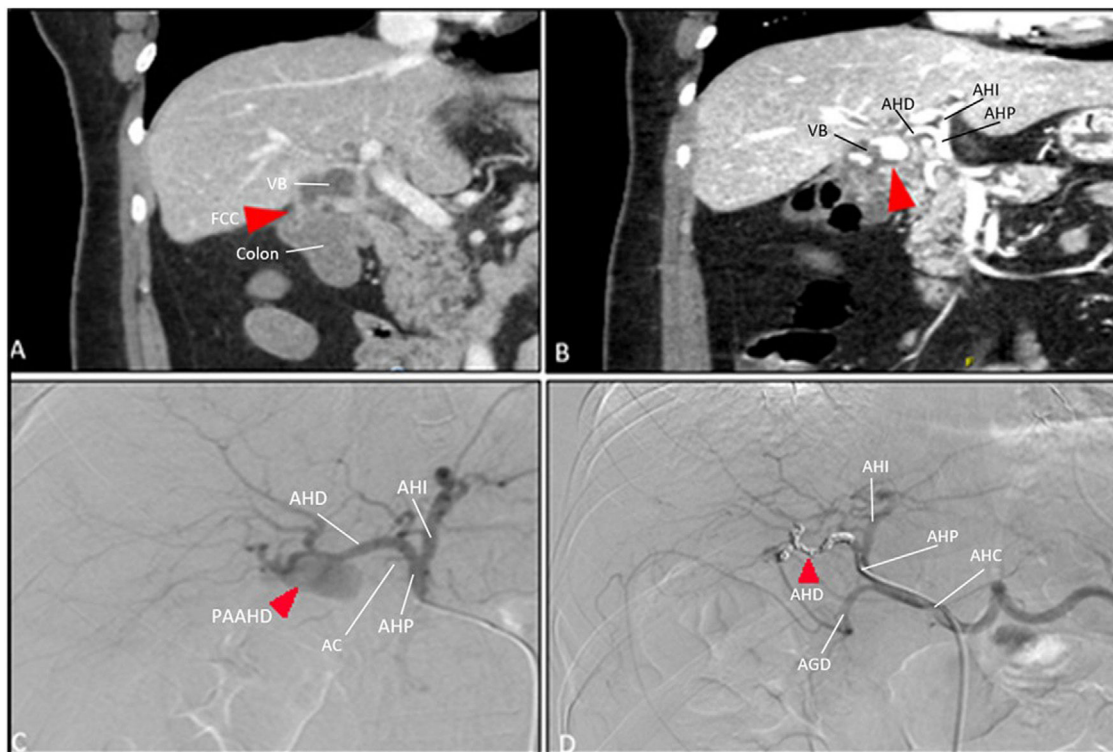


Figura 1 – Ilustración 1. A) Colecistitis aguda sobre colecistopatía crónica asociada a fístula colecistocólica. B) Hemorragia activa intravesicular C) PAAHD. D) Arteriografía postembolización con coils.

VB: vesícula biliar; FCC: fístula colecistocólica; AHI: AH izquierda; AHP: AH propia; AC: A cística; AHC: AH común; AGD: A gastroduodenal.

Tabla 1 – Casos publicados en la literatura internacional de PAAHD en el contexto de colecistitis

Autor	Referencia	Edad	Sexo	Clínica	Pruebas complementarias	Diagnóstico PAAHD	Ruptura al diagnóstico	Embolización	Cirugía	Seguimiento
1 Tung-Ping Poon R et al.	GIE, volume 51, no. 4, part 1, 2000	78	M	Fiebre Dolor abdominal Melenas	Gastroscoopia TAC Arteriografía	Arteriografía	Sí	Sí (post-IQ)	Laparotomía exploradora	Alta 10° DPO, asintomática 3 meses
2 Akatsu T et al.	J Gastroenterol 2004; 39:900-903	64	F	Dolor abdominal Hematemesis Melenas	Gastroscoopia ECO Doppler TAC Arteriografía	Arteriografía	Sí	Sí (pre-IQ)	Colecistectomía abierta + Y de Roux	Asintomática 5 años
3 Shan-Zu L et al.	Clin Gastroenterol Hepatol. 2009 Dec;7(12):e73	73	F	Ictericia Dolor abdominal Melenas	Gastroscoopia CPRE RMN	Intraoperatorio	No	Sí (post-IQ)	Colecistectomía abierta + ligadura aneurisma	Asintomática 2 años
4 Ramirez-Maldonado R et al.	Surg Case Rep. 2011 Mar 1;2011(3):4	70	F	Dolor abdominal		TAC	Sí	Sí (pre-IQ)	Colecistectomía abierta	Hepatectomía derecha por isquemia 28° DPO
5 Das M et al.	SAGE Open Medical Case Reports January 2019	72	F	Dolor abdominal Vómitos	ECO Gastroscoopia CPRE TAC Arteriografía	Arteriografía	Sí	Sí (pre-IQ)	Colecistectomía subtotal reconvertida	-
6 Khalid S et al.	JIMHICR January 2020	80	M	Dolor abdominal Melenas	TAC Arteriografía	Arteriografía	No	Sí (pre-IQ)	Colecistectomía abierta + cierre fistula	Exitus
7 Esgueva M et al.	-	46	F	Dolor abdominal Melenas	TAC Gastroscoopia Arteriografía	Arteriografía	Sí	Sí (pre-IQ)	Colecistectomía abierta + cierre fistula	Asintomática 1 mes

M: masculino; F: femenino; ECO: ecografía; TAC: tomografía axial computarizada; CPRE: colangiopancreatografía retrógrada endoscópica; pre-IQ: antes de la intervención quirúrgica; post-IQ: después de la intervención quirúrgica; DPO: día postoperatorio.

bilirrubina y transaminasas. Se realizó laparotomía exploradora cuatro días después, constatándose la presencia de la fístula colecistocólica y la comunicación de la AH con el *fundus* vesicular, observándose así mismo los coils en el interior de la luz vesicular. Se practicó una colecistectomía reglada y rafia de la fístula colecisto-cólica mediante puntos sueltos. El postoperatorio transcurrió sin incidencias, siendo alta al décimo día. El informe anatomopatológico confirmó la colecistitis crónica litiasica.

El diagnóstico de los aneurismas de arteria hepática (AAH) suele ser incidental, siendo el dolor abdominal y/o lumbar los principales síntomas asociados¹. El riesgo de ruptura es mayor en los pseudoaneurismas^{1,3}. La tríada clásica de Quincke⁴, constituida por dolor en hipocondrio derecho, hemorragia digestiva e ictericia, debido a hemobilia, se presenta en menos de un tercio de los pacientes. La incidencia general de ruptura ronda el 25%, con una mortalidad entre el 20 al 70%, según las series¹. Además, la acción fibrinolítica de la bilis favorece el desarrollo de un shock hemorrágico. Pese a que la arteriografía constituye el *gold standard*^{4,8}, la prueba diagnóstica de elección es el angio-TC, por ser menos invasivo y presentar elevada sensibilidad y especificidad^{2,3,10}. Al ser una patología infrecuente no existe un consenso de manejo, pero se recomienda el tratamiento de todos los pseudoaneurismas, independientemente del tamaño o sintomatología, por el riesgo aumentado de ruptura^{1,3}.

La presencia de un pseudoaneurisma de la arteria cística (PAAC) en el contexto de una colecistitis es una rara condición. Se postula que la inflamación visceral adyacente a la pared vascular puede provocar lesión de la adventicia y trombosis de los vasa vasorum^{4,10}, contribuyendo a la aparición de pseudoaneurismas¹. Patil et al.¹⁰, en su reciente revisión, comunican un total de 59 PAAC. En nuestro conocimiento, los PAAHD parecen ser aún más excepcionales, habiendo encontrado únicamente seis casos publicados en la literatura internacional (tabla 1)^{2,4-8}.

Según la revisión de las experiencias comunicadas sobre los PAAHD debidos a colecistitis^{2,4-8}, la edad media de los pacientes fue de 72,8 años con predominancia del sexo femenino (3:1). La clínica predominante fue el dolor abdominal (100%)^{2,4-8}, seguido de hemorragia digestiva alta (HDA) (melenas 66,6%^{2,4-6}, hematemesis 16,6%⁵). La fiebre resultó ser poco frecuente⁴ (16,6%). La presentación como fístula colecistoentérica (síndrome de Mirizzi grado V), se dio en dos pacientes^{2,4} (33,3%). En tres casos (33,3%) se observó sangrado a través de la papila de Vater mediante gastroscopia^{5,6}. El diagnóstico de PAAHD se realizó mediante TC en un caso⁷ (16,6%), mientras que el 66,6% requirió arteriografía^{2,4,5,8}. En un caso, el hallazgo del pseudoaneurisma fue intraoperatorio⁶. Se realizó embolización prequirúrgica al 66,6%^{2,5,7,8}, realizándose en los otros dos casos durante el postoperatorio^{4,6}. La colecistectomía se completó en el 83,3% de los casos^{2,5-8}. En un caso, que contaba con fístula colecistoduodenal, fue técnicamente imposible realizarla por sangrado incontrolable, requiriendo embolización posquirúrgica del PAAHD y colecistectomía diferida⁴. Un paciente falleció durante la colecistectomía debido a una hemorragia incontrolable, a pesar de haberse sometido a angioembolización previa. Este caso también contaba con una fístula colecistocólica².

La embolización preoperatoria tanto de los PAAC como de los PAAHD reduce el riesgo de hemorragia intraoperatoria, lo que puede facilitar la disección durante la colecistectomía. Por otra parte, la necesidad de realizar la colecistectomía en todos los casos es objeto de debate. Aunque exista riesgo de isquemia vesicular o incluso hepática, algunos autores abogan por prescindir de ella en pacientes de elevado riesgo quirúrgico¹⁰.

Los PAAHD son, por tanto, una entidad excepcional en el contexto de colecistitis, cuya sospecha diagnóstica debe establecerse ante pacientes con colecistitis aguda y hemorragia digestiva. La escasez de bibliografía disponible impide establecer un algoritmo terapéutico, siendo lo primordial una actuación precoz para estabilizar al paciente. La angioembolización presenta resultados satisfactorios como medida inicial, frenando el sangrado y disminuyendo el riesgo de hemorragia intraoperatoria durante la colecistectomía.

Financiación

Este trabajo no ha recibido ningún tipo de financiación.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

1. Chaer RA, Abularrage CJ, Coleman DM, Eslami MH, Kashyap VS, Rockman C. Hepatic Artery Aneurysm (HAA) The Society for Vascular Surgery clinical practice guidelines on the management of visceral aneurysms. *Vasc Surg*. 2020;72:23S-6S.
2. Poon RT, Tuen H, Yeung C. GI hemorrhage from fistula between right hepatic artery pseudoaneurysm and the duodenum secondary to acute cholecystitis. *Gastrointest Endosc*. 2000;51(4 Pt 1):491-3.
3. Kwong J.M, Rockman C.B, Kashyap V.S. Visceral artery aneurysms. *Rutherford's Vascular Surgery and Endovascular Therapy*. Philadelphia; Elsevier. 9th ed. 1110-1120.
4. Das M, Volmar FH, Walayat S, Nolte R. Hemobilia from a right hepatic artery pseudoaneurysm due to chronic cholecystitis. *SAGE Open Med Case Rep*. 2019;7. 2050313X19872075.
5. Sawalha K, Kunnumpurath A, McCann R. An Unusual Cause of an Intraperitoneal Bleed: Bleeding Hepatic Artery Pseudoaneurysm Due to an Eroding Cholecystitis. *J Investig Med High Impact Case Rep*. 2020;8. 2324709620982431.
6. Lin SZ, Tseng CW, Chen CC. Hepatic artery pseudoaneurysm presenting with Mirizzi syndrome and hemobilia. *Clin Gastroenterol Hepatol*. 2009;7:e73.
7. Ramirez-Maldonado R, Ramos E, Dominguez J, Mast R, Llado L, Torras J, et al. Pseudoaneurysm of the right hepatic artery and bile duct necrosis as a complication of acute cholecystitis in a diabetic patient. *JSCR*. 2011;3:4.
8. Akatsu T, Hayashi S, Egawa T, Doi M, Nagashima A, Kitano M, et al. Hepatic artery pseudoaneurysm associated with cholecystitis that ruptured into the gallbladder. *J Gastroenterol*. 2004;39:900-3.

9. Blatchford O, Murray WR, Blatchford M. A risk score to predict need for treatment for upper-gastrointestinal haemorrhage. *Lancet*. 2000 Oct 14;356:1318–21.
10. Patil NS, Kumar AH, Pamecha V, Gattu T, Falari S, Sinha PK, et al. Cystic artery pseudoaneurysm-a rare complication of acute cholecystitis: review of literature. *Surg Endosc*. 2022;36:871–80.

Marina Esgueva Angulo^{a*}, Arkaitz Perfecto Valero^{ab},
Mikel Prieto Calvo^{abc}, Alberto Ventoso Castiñeira^{ab} y
Andrés Valdivieso López^{abc}

^aServicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Universitario Cruces, Instituto de Investigación Sanitaria BioCruces, Bizkaia, España

^bUnidad de Cirugía Hepatobiliar y Trasplante Hepático, Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Universitario Cruces, Bizkaia, España

^cUniversidad del País Vasco, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: marina.esguevaangulo@osakidetza.eus (M. Esgueva Angulo).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2022.08.008>
0009-739X/

© 2022 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Neoplasia tubulopapilar intraductal pancreática (ITPN): una nueva entidad diferente a la neoplasia mucinosa intraductal del páncreas



Intraductal tubulopapillary neoplasm (ITPN) of the pancreas: A new entity different from intraductal mucinous neoplasm of the pancreas

La neoplasia tubulopapilar intraductal (ITPN) del páncreas constituía un raro subgrupo de las neoplasias papilares mucinosas intraductales (IPMN) hasta la nueva clasificación publicada por la Organización Mundial de la Salud (OMS) en 2019¹. Fue descrita por primera vez en 2009². Representa menos del 1% de todas las neoplasias pancreáticas exocrinas y el 3% de las neoplasias intraductales del páncreas³. Se considera una lesión premaligna, siendo posible su progresión a carcinoma invasivo. Aunque la incidencia real y el pronóstico oncológico son desconocidos, parece presentar un mejor comportamiento biológico que el resto de las neoplasias papilares mucinosas intraductales⁴.

Se presenta un caso de ITPN: Se trata de un varón de 41 años al que en el contexto de un dolor abdominal súbito se le realizó una tomografía computarizada con hallazgo de una lesión sólida en la cola del páncreas de 4 × 2 cm. Se realizaron pancreato-colangio resonancia magnética y ecoendoscopia, en las que además de confirmar dicha lesión, se observó que no presentaba comunicación con el ducto pancreático principal, no había dilatación del Wirsung, ni infiltración de estructuras vecinas, ni compromiso vascular. La biopsia por ecoendoscopia fue de adenocarcinoma ductal.

Ante la sospecha de neoplasia maligna, el paciente se intervino mediante laparotomía, con hallazgo de tumoración sólida en cuerpo-cola pancreática que infiltraba el hilio esplénico, sin presentar afectación de otras estructuras vasculares adyacentes. Se realizó esplenopancreatectomía

corporocaudal radical modular anterógrada (RAMPS) anterior. El muñón pancreático se reforzó con una sutura continua reabsorbible V-lock 3/0.

El estudio patológico resultó en un ITPN con un carcinoma invasivo intrapancreático asociado de 1,5 cm T1cN0, sin mutación V600E del gen BRAF. La inmunohistoquímica mostró positividad para CK7, CK19, MUC-1, MUC-6 y MUC-5AC de manera parcheada, con negatividad para BCL-10, cromogranina, sinaptofisina, beta-catenina, CD10, MUC-2, Her-Par1 y KRAS.

El paciente evolucionó favorablemente. Presentó una fístula pancreática tipo A que se controló de manera conservadora (Dindo-Clavien II), siendo dado de alta el 8.º día postoperatorio. Recibió tratamiento adyuvante con Folfirinox durante 6 meses, encontrándose libre de enfermedad.

Según la última clasificación de la OMS del 2019 los ITPN se separan de los IPMN, siendo su principal diferencia la ausencia de mutación del KRAS¹. Otras características inmunohistoquímicas típicas son la positividad para CK 7 y/o CK 19 y la negatividad para tripsina, MUC-2, MUC-5AC y fascina³. Este tipo de neoplasias fueron descritas por primera vez en 2009 por Yamaguchi et al.². Desde entonces la mayoría de publicaciones comunican casos clínicos aislados, siendo la serie de casos multicéntrica más extensa la publicada por Basturk et al. con 33 casos⁵ (tabla 1. Material suplementario). Aún más excepcional es el caso de los ITPN