



REVISTA DE GASTROENTEROLOGÍA DE MÉXICO

www.elsevier.es/rgmx



CARTA CIENTÍFICA

Hígado ectópico intrapélvico como causa excepcional de infertilidad femenina: Reporte de un caso



Ectopic intrapelvic liver as an exceptional cause of female infertility: A case report

Las anomalías en el posicionamiento del hígado o la presencia de tejido hepático ectópico son consideradas entidades poco comunes que cursan asintomáticas y son encontradas de manera accidental. Su incidencia es de 0.24 a 0.56%, según informes de caso en cirugía laparoscópica y reportes de autopsia¹.

Los tamaños reportados varían desde milímetros hasta algunos centímetros. Esta patología fue clasificada por Collan et al. en cuatro tipos: Tipo 1, hígado ectópico no conectado al hígado madre sino a la vejiga o ligamentos abdominales, tipo 2, hígado ectópico microscópico frecuentemente encontrado en la pared de la vejiga; tipo 3, gran lóbulo hepático accesorio unido al hígado madre por un pedículo y tipo 4, lóbulo hepático pequeño unido al hígado madre².

Un hígado ectópico implica la exposición a factores que predisponen a carcinogénesis. Reportándose una incidencia de hepatocarcinoma hasta en el 30% de los casos y que comúnmente se relaciona con anomalías vasculares y de vía biliar^{3,4}.

Existen únicamente dos reportes de caso en la literatura de una vesícula biliar intrahepática en un hígado pélvico. Ambos pacientes fueron diagnosticados de manera incidental y contaban con el antecedente de reparación de un onfalocele en la infancia. En estos casos, el conducto hepático derecho e izquierdo se unían para formar el conducto hepático común que tomaba dirección craneal para entrar en el ámpula duodenal en la localización habitual^{5,6}. En este artículo, presentamos el caso de un hígado ectópico con vía biliar intrahepática localizado en la pelvis y encontrado de manera incidental durante el abordaje de infertilidad femenina.

Caso clínico

Se presenta el caso de una paciente de sexo femenino de 23 años de edad, previamente en estudio por infertilidad femenina, enviada por ginecología a valoración por

gastroenterología para descartar enfermedad hepática debido a anomalías estructurales encontradas de manera incidental en el ultrasonido abdominal, realizado como parte del protocolo de infertilidad. Como antecedentes personales patológicos pertinentes, se refiere una reparación de pared abdominal por gastrosquisis en la infancia y un antecedente ginecobstétrico de aborto espontáneo a las seis semanas de gestación, dos años previos. El resto de los antecedentes fue interrogado y negado. En el examen físico, se observa la presencia de cicatrices abdominales a lo largo de la línea media, peristalsis presente, masa palpable en hipogastrio de bordes lisos, regulares, poco móvil, bien delimitada, no dolorosa a la palpación y mate a la percusión. Dentro de los exámenes de laboratorio y gabinete, se encuentran pruebas de función hepática: Bilirrubina total 0.8 mg/dL, fosfatasa alcalina 46 mg/dL, gamma-glutamil transpeptidasa (GGT) 75 mg/dL, aspartato aminotransferasa (AST) 27 mg/dL, alanina aminotransferasa (ALT) 36 mg/dL y albúmina 4.1 mg/dL.

El ultrasonido abdominal se reportaba como: «Glándula hepática con notable aumento en sus dimensiones, muestra ecogenicidad y ecotextura homogénea, sin dilatación de la vía biliar intra o extra hepática. El colédoco mide 2.5 mm y la vena porta 5 mm de calibre. La vesícula biliar de pared delgada y anecoica en su interior. Páncreas no valorable por interposición de asas intestinales. Riñón derecho no valorable en este momento, solo se ubica fosa renal derecha. Impresión diagnóstica: hepatomegalia grado III, probable agenesia vs. Ectopia renal derecha.»

Debido a los datos encontrados en el estudio de imagen inicial, se solicita una angiografía de abdomen y pelvis donde, en la fase simple, se muestra la ausencia de hígado en el hipocondrio derecho, con un diámetro máximo de 187 mm, ubicado en el hipogastrio a lo largo de la pelvis, con la presencia de un lóbulo de Riedel como variante anatómica (fig. 1). Ambos riñones se observan desplazados a nivel del diafragma y el páncreas está redondeado. En la fase arterial con reconstrucciones MIP (Maximum Intensity Projection) y VRT (Volume Rendering Technique) (fig. 2), se objetiva ausencia de tronco celíaco, encontrando emergencia solitaria de la arteria esplénica en forma proximal y en forma distal la emergencia de la arteria hepática. La cual se subdivide en arterias hepáticas derecha e izquierda. La arteria mesentérica superior no presenta alteraciones en su trayecto o calibre. Se realiza una colangiografía magnética que muestra integridad de la vía biliar intrahepática.



Figura 1 Tomografía abdominopélvica en fase arterial contrastada. Corte coronal que muestra localización pélvica de la glándula hepática con presencia de lóbulo de Riedel.

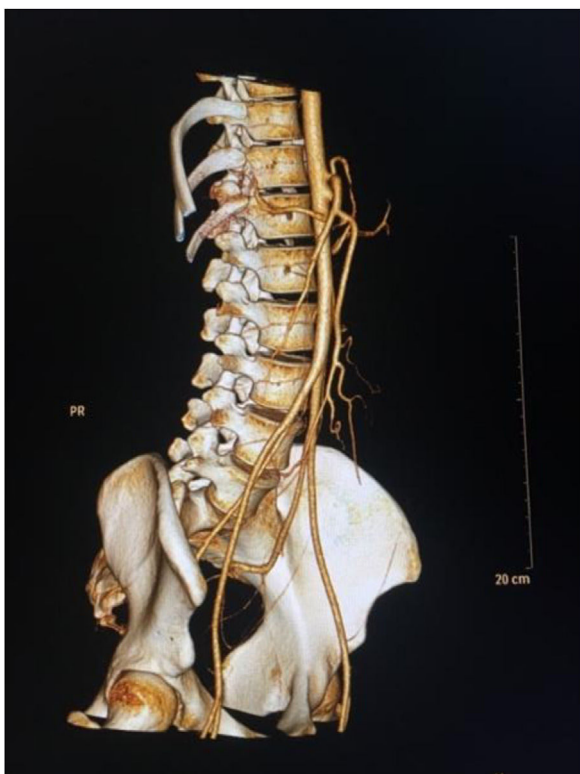


Figura 2 Angiotomografía axial computarizada con reconstrucciones MIP y VRT (Maximum Intensity Projection) y VRT (3D Volume Rendering Technique) en su fase arterial que muestra las características del tronco celíaco y las arterias hepáticas con discurrir hacia región pélvica.

Conclusión

El tejido hepático puede migrar a diferentes sitios durante la embriogénesis. El hígado errante se describe como asintomático, pero también se ha definido como una causa de hemorragia intraabdominal y de malignidad¹. Se establece como una condición rara que resulta después de la reparación de defectos congénitos de la pared abdominal.

Durante su abordaje por parte de ginecología, se realizó un perfil hormonal ovárico el cual se encontraba dentro de los parámetros normales, así como la integridad de ovarios y útero en los estudios de imagen. Al no identificar lesiones y hallar las pruebas de funcionamiento hepático sin alteraciones, se decidió no efectuar una biopsia de hígado y concluimos que se trataba de una función hepática metabólica normal. Durante un año se ha dado seguimiento al caso, la paciente no ha podido lograr el embarazo ni ha presentado complicaciones en relación con la función hepática.

Después de una revisión literaria, se encontraron reportes de caso sobre pacientes con diagnóstico de gastrosquisis e hígado ectópico. Sin embargo, no fue posible hallar una asociación directa de infertilidad con un hígado errante, aun cuando esto fue lo que condujo al descubrimiento de esta variante anatómica en la paciente, ya que no se reportan casos en la literatura de dicha relación.

Hay muchas consideraciones a tener en cuenta sobre este caso. Nos enfrentamos a un área de poco conocimiento respecto al curso que podría tomar un embarazo en estas circunstancias, suponiendo que fuese viable; así como el efecto que puede ejercer el producto sobre el hígado, por lo que es necesario encontrar mayor evidencia al respecto, así como investigar la asociación que existe entre ambas entidades.

Consideraciones éticas

Dentro de esta investigación no se realizaron experimentos con animales ni humanos. Se ha consentido previamente, por parte de la paciente, la divulgación de los datos clínicos establecidos. El presente trabajo cuenta con la autorización del departamento de ética del Hospital General De Occidente para la revisión de los datos e imágenes obtenidas del reporte de caso, teniendo en cuenta las normas vigentes sobre la protección de datos y la investigación en seres humanos contemplada en la Declaración de Helsinki de Asociación Médica Mundial. No se usan datos, imágenes o algún rasgo sobre la paciente que pueda facilitar su identificación. En este reporte de caso se declara que, mediante el consentimiento informado previo, se otorga la autorización por parte de la paciente para presentar este trabajo.

Financiación

No se recibió patrocinio de ningún tipo para llevar a cabo este artículo.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Referencias

- Zonca P, Martinek L, Ihnat P, et al. Ectopic liver: different manifestations, one solution. *World J Gastroenterol.* 2013;19:6485–9, <http://dx.doi.org/10.3748/wjg.v19.i38.6485>.
 - Mathis R, Stodghill J, Shaver T, et al. Cholecystectomy of an intrahepatic gallbladder in an ectopic pelvic liver: a case report and review of the literature. *Case Rep Surg.* 2017;2017:3568768, <http://dx.doi.org/10.1155/2017/3568768>.
 - Puthenpurayil K, Blachar A, Ferris JV. Pelvic ectopia of the liver in an adult associated with omphalocele repair as a neonate. *AJR Am J Roentgenol.* 2001;177:1113–5, <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.177.5.1771113>.
 - Iber T, Rintala R. Intrapulmonary ectopic liver. *J Pediatr Surg.* 1999;34:1425–6, [http://dx.doi.org/10.1016/s0022-3468\(99\)90028-3](http://dx.doi.org/10.1016/s0022-3468(99)90028-3).
 - Sakarya A, Erhan Y, Aydede H, et al. Ectopic liver (choristoma) associated with the gallbladder encountered during laparoscopic cholecystectomy: a case report. *Surg Endosc.* 2002;16:1106, <http://dx.doi.org/10.1007/s00464-001-4251-5>.
 - Caygill CPJ, Gatenby PAC. Ectopic liver and hepatocarcinogenesis. *Eur J Gastroenterol Hepatol.* 2004;16:727–9, <http://dx.doi.org/10.1097/01.meg.0000131037.92864.df>.
- O. Montoya-Montoya^{a,b,*}, S. Palomino-Ayala^{a,b,c} y M.O. Santana-Montes^{a,b}
- ^a *Departamento de Medicina Interna, Hospital General De Occidente, Zapopan, México*
^b *Universidad de Guadalajara, Guadalajara, México*
^c *Departamento de Gastroenterología y Endoscopia, Hospital General De Occidente, Zapopan, México*
- * Autor para correspondencia. Hospital General De Occidente, Av. Zoquipan No. 1050, Colonia Seattle, C.P. 45170, Zapopan, Jalisco, México. Teléfono: +52 (33) 14668298
 Correo electrónico: oliviamontoyam@gmail.com (O. Montoya-Montoya).
- <https://doi.org/10.1016/j.rgm.2020.04.011>
 0375-0906/ © 2021 Asociación Mexicana de Gastroenterología. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Proctitis ulcerada asociada a linfogranuloma venéreo



Ulcerative proctitis associated with lymphogranuloma venereum

El diagnóstico diferencial de proctitis en hombres que tienen sexo con hombres (HSH) suele ser difícil ya que se incluyen múltiples causas de origen infeccioso, inflamatorio e incluso traumáticas. El linfogranuloma venéreo (LGV) es una infección de transmisión sexual causada por *Chlamydia trachomatis* (*C. trachomatis*). Suele manifestarse como una pápula ulcerada e indolora en genitales, adenopatías inguinales y como proctitis distal¹. La progresión de la enfermedad, con relación a un diagnóstico tardío puede provocar complicaciones graves como estenosis rectal, obstrucción y perforación^{1,2}.

Presentamos el caso de un paciente de 35 años, con antecedente de infección por VIH diagnosticado en 2012 a propósito de una meningitis por Epstein Barr. En la actualidad en tratamiento con terapia antirretroviral altamente efectiva con raltegravir 400 mg, tenofovir/emtricitabina 300/200 mg, con conteo de linfocitos CD4+ de 248 células y carga viral indetectable. Portador asintomático de infección por hepatitis B.

Ingresó por cuadro clínico de 3 meses de evolución consistente en dolor intenso en la región recto-anal, disquicia, pujo, tenesmo, asociado a episodios frecuentes de rectorragia. En la revisión por sistemas mencionaba picos febriles ocasionales, astenia, adinamia, hiporexia, mialgias y artralgias.

Al examen físico se destacaba la presencia de dolor en hipogastrio, sin irritación peritoneal. En la evaluación perianal se observó una fisura anal posterior profunda, con marcado edema del canal anal. No se palpan adenopatías en región inguinal, tampoco lesiones en la piel. Debido a sus antecedentes, se decidió descartar la coinfección por otras

infecciones de transmisión sexual u oportunistas. Se solicitó serología VDRL, IgM para Epstein Barr y una rectosigmoidoscopia para la evaluación de la mucosa, canal anal y toma de biopsias.

En la rectosigmoidoscopia se describen severos cambios inflamatorios y úlceras inflamatorias profundas de bordes irregulares que comprometían el recto medio y distal, con compromiso del canal anal (fig. 1A-C). Se tomaron biopsias para identificar el agente causal. Dentro de la patología se describe abundante infiltrado linfoplasmocitario de la mucosa, sin cambios citopáticos virales, con atrofia y sin displasia. El examen directo con técnicas para micobacterias, citomegalovirus, hongos fueron negativos, así como cultivo de Thayer Martin para infección por *Neisseria gonorrhoeae* (*N. gonorrhoeae*), y la PCR para hongos y micobacterias. Por lo cual se ordenó PCR en tejido *C. trachomatis*. La serología VDRL para sífilis fue reactiva en 16 diluciones. Por ello, aparte del tratamiento con doxiciclina 100 mg por vía oral cada 12 h, se le administró penicilina benzatínica 2,4 millones/semana por 3 semanas.

Reingresó 2 semanas después a urgencias por un cuadro de dolor abdominal, con escaso sangrado rectal. Se solicitó tomografía axial computarizada y una rectosigmoidoscopia. La primera imagen descartó perforación y colecciones asociadas. En la rectosigmoidoscopia se evidencia mejoría significativa de los cambios inflamatorios, así como presencia de úlceras en cicatrización (ver fig. 2A-C). Tras el control sintomático, el paciente fue dado de alta, y completó el tratamiento con doxiciclina durante 21 días.

La proctitis infecciosa en HSH, en especial en quienes tienen historia de VIH, es variada. Los patógenos más frecuentes son *N. gonorrhoeae*, *C. trachomatis*, virus del herpes simple y *Treponema pallidum*^{2,3}. En un estudio australiano se encontraron diferencias en la prevalencia de los gérmenes causales de proctitis infecciosa en HSH según su estado inmunológico³. En quienes tenían historia de infección por VIH el germen más frecuente fue el virus del herpes simple, en cambio en los VIH negativos fue más frecuente