

Diagnóstico endoscópico y tratamiento de bilhemia de origen no traumática. Reporte de un caso

Dr. Alfredo Güitrón-Cantú,* Dr. Raúl Adalid-Martínez,** Dr. José A. Gutiérrez-Bermúdez,*
Dr. Armando Aguirre-Díaz,*** Dr. Manuel Olhagaray-Rivera***

* Departamento de Endoscopia Digestiva. ** Departamento Clínico de Gastroenterología. *** Departamento de Radiodiagnóstico. Hospital de Especialidades No. 71, Instituto Mexicano del Seguro Social, Torreón, Coahuila.

Correspondencia: Dr. Alfredo Güitrón, Departamento de Endoscopia Digestiva, Hospital de Especialidades No. 71, Instituto Mexicano del Seguro Social, Blvd. Revolución y Calle 26, 27000 Torreón, Coahuila. Tel. 01 871 7829 08 00.

Recibido para publicación: 21 de noviembre de 2001.

Aceptado para publicación: 25 de julio de 2002.

RESUMEN. Las fistulas biliovasculares son comunicaciones anormales que clínicamente se manifiestan en dos formas, dependientes del tipo de flujo en el trayecto fistuloso: 1) hemorragia hacia el tracto biliar conocido como hemobilia, o 2) paso de bilis hacia el flujo sanguíneo, designado como bilhemia. Históricamente esta complicación ha sido tratada mediante cirugía; sin embargo, los avances tecnológicos de hoy día permiten el uso de técnicas intervencionistas sin que sea obligatorio el acto quirúrgico. La bilhemia, término introducido en 1975 por Clemens y Wittrin, es una complicación poco frecuente de daño hepático que genera niveles excesivamente altos de bilirrubina en sangre y moderada elevación de enzimas hepáticas secundario a fistula biliovenosa intrahepática postraumática. Aunque esta patología es rara, se considera peligrosa; de los 50 pacientes reportados en la literatura, 25 han muerto por esta razón. La causa dominante de la bilhemia en estos casos es el traumatismo. El principal propósito del tratamiento es liberar la obstrucción ductal ya sea mediante la práctica de esfinterotomía endoscópica de papila de Vater o, en caso de que el proceso se localice en áreas proximales de la vía biliar, mediante un drenaje biliar percutáneo o, preferentemente, drenaje nasobiliar con succión continua. Este abordaje puede, al menos, generar alivio temporal y en ocasiones cierre de la fistula. Un efecto más prolongado puede obtenerse mediante la colocación de una endoprótesis biliar. Describimos lo que es, en nuestro conocimiento, el primer caso de diagnóstico y tratamiento exitoso de bilhemia no traumática mediante esfinterotomía endoscópica y colocación de catéter nasobiliar.

Palabras clave: bilhemia.

SUMMARY. Biliovascular fistulas are abnormal communications with two types of clinical manifestations depending on type of flow in fistulous tract: 1) hemorrhage into biliary tract known as hemobilia, or 2) bile into bloodstream, known as bilhemia. Historically, this complication has been treated with surgery; however, technological progress at present allows treatment with intervention techniques without surgery being mandatory. In 1975, Clemens and Wittrin introduced the term bilhemia, a rare complication of hepatic damage producing excessively high levels of serum bilirubin and moderate rise of hepatic enzymes secondary to post-traumatic intrahepatic biliovenous fistula. Although this pathology is rare, it is considered dangerous; of 50 patients reported in the literature, 25 died due to this problem. The main purpose of treatment is to release tract obstruction by endoscopic sphincterotomy of Vater's papilla or, if the process is localized in proximal areas of biliary tract, through percutaneous biliary drainage or preferably nasobiliary drainage with continuous suction. This procedure can at least produce temporary relief and occasionally fistula closure. A longer effect can be achieved with biliary stent placement. We describe what is, to our knowledge, the first case of diagnosis and successful treatment of non-traumatic bilhemia with endoscopic sphincterotomy and nasobiliary catheter placement.

Key words: Bilhemia.

Se describe lo que es, en nuestro conocimiento, el primer caso de diagnóstico y tratamiento exitoso de bilhemia no traumática mediante esfinterotomía endoscópica y colocación de catéter nasobiliar.

REPORTE DEL CASO

Femenina de 68 años de edad con antecedentes de colecistectomía y exploración de vías biliares a cielo abierto programada y llevada a cabo en marzo de 2000 por colecistitis crónica y coledocolitiasis con depuración de colédoco y colocación de sonda en T sin reportarse accidentes transoperatorios.

Una semana después de la cirugía, la paciente inicia con fiebre cuantificada en 37.5 °C, discreto ataque al estado general, ictericia con incremento paulatino, coluria e hipocolia. Se realizan exámenes de laboratorio que muestran hemoglobina de 13.5 g/L, leucocitos de 11,000 con cuenta diferencial normal. Las pruebas de función hepática mostraron elevación de bilirrubinas en 4.8 mg/dL con franco predominio de la fracción directa, transaminasa glutámico oxalacética de 55 U/L (normal < de 40), transaminasa pirúvica de 50 U/L (normal < de 45), fosfatasa alcalina de 115 U/L (normal < de 90). Las proteínas totales, deshidrogenasa láctica y tiempo de protrombina normales.

Dos semanas después, la bilirrubina incrementó a 31.6 mg/dL, con fosfatasa alcalina de 612 U/L, leucocitosis de 14,300 con neutrofilia y desviación hacia la izquierda, mínima elevación de transaminasa glutámico oxalacética y pirúvica, tiempo de protrombina dentro de la normalidad. Se realizó ultrasonido abdominal que mostró vía biliar de calibre normal, con área hipoeoica en lóbulo izquierdo del hígado (*Figura 1*). Una colangiografía por sonda en T reveló dudosa imagen radiolúcida en colédoco distal con paso de contraste a duodeno.

Se realizó colangiopancreatografía endoscópica (CPE) que mostró vía biliar de calibre normal sin litos en su interior, sonda en T *in situ* y permeabilidad en todo el trayecto sin evidencia de lesiones. Se observó llenado de una cavidad en el parénquima hepático sobre el lóbulo izquierdo, segmento VIII, de aspecto irregular, de aproximadamente 30 mm en su diámetro mayor y cuya evacuación es evidente hacia la vena suprahepática, vena cava inferior y aurícula derecha (*Figuras 2 y 3*). No se observó salida de sangre por la papila de Vater ni en el duodeno. Se realizó esfinterotomía del segmento biliar del esfínter de Oddi, y se colocó catéter nasobiliar de 8.5 Fr de calibre (Wilson-Cook Medical Inc., Winston-Salem NC) cuya punta se llevó hasta el interior de la zona



Figura 1. Ultrasonido abdominal muestra vía biliar de calibre normal con área hipoeoica en lóbulo hepático izquierdo.



Figura 2. CPE muestra una cavidad en el parénquima hepático del segmento VIII del lóbulo derecho.

quística (*Figura 4*). La tomografía computada de abdomen confirmó dicha lesión en el lóbulo izquierdo y la comunicación biliovenosa al instilar material de contraste por el catéter nasobiliar (*Figura 5*).

Tres días después del procedimiento la bilirrubina total disminuyó a 12.8 mg/dL con baja paulatina en los días subsiguientes al igual que los valores de fosfatasa alcalina. Al séptimo día de hospitalización se realizó colangiografía de control por catéter nasobiliar, mismo que demostró desaparición de la zona quística con cierre absoluto de la fistula biliovenosa (*Figura 6*). Las condiciones clínicas de la paciente mejoraron notablemente, los niveles de bilirrubina total, fosfatasa alcalina, leucocitos y resto de pruebas analíticas resultaron

normales, por lo que la paciente se externa del hospital.

Después de 12 semanas se repitió la CPE que no mostró colecciones intrahepáticas ni fuga del material de contraste. El árbol biliar era de características esenciales normales. Las pruebas de función hepática y biometría hemática fueron normales.

Las fistulas biliovasculares son comunicaciones anormales que clínicamente se manifiestan en dos formas, dependientes del tipo de flujo en el trayecto fistuloso: 1) hemorragia hacia el tracto biliar conocido como hemo-bilia,¹ o 2) paso de bilis hacia el flujo sanguíneo, desig-

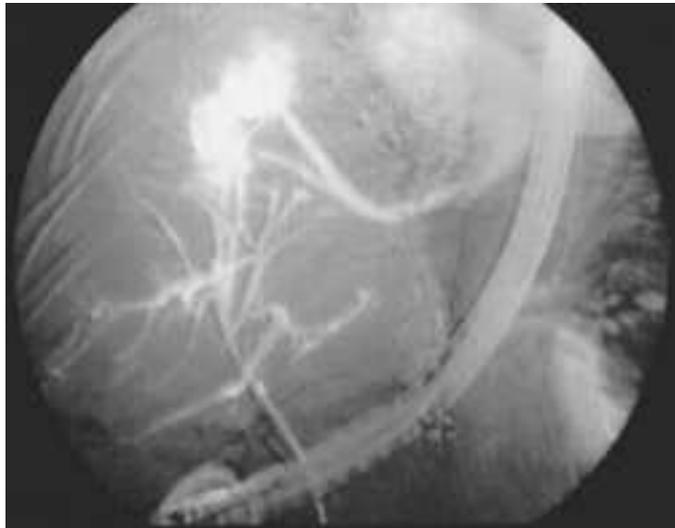


Figura 3. CPE muestra una cavidad de aspecto irregular en lóbulo hepático derecho que drena por vena suprahepática hasta aurícula derecha.



Figura 4. CPE muestra un catéter nasobiliar que se colocó con la punta en el interior de la zona quística.



Figura 5. TAC abdominal muestra una lesión en el lóbulo hepático izquierdo y una comunicación biliovenosa.

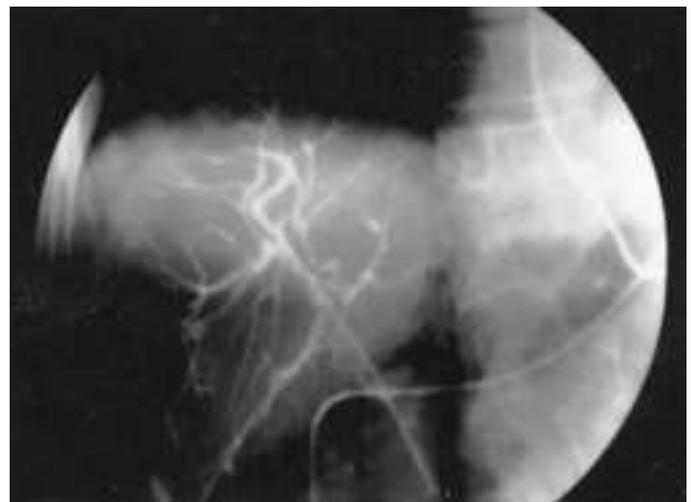


Figura 6. Colangiografía nasobiliar muestra desaparición de la zona quística y cierre completo de la fistula biliovenosa.

nado como bilhemia.² Históricamente esta complicación ha sido tratada mediante cirugía; sin embargo, los avances tecnológicos de hoy día permiten la terapéutica por técnicas intervencionistas sin que sea obligatorio el acto quirúrgico.³

La bilhemia, término introducido en 1975 por Clemens y Wittrin,⁴ es una complicación poco frecuente de daño hepático que genera niveles excesivamente altos de bilirrubina en sangre y moderada elevación de enzimas hepáticas secundario a fistula biliovenosa intrahepática postraumática. Tradicionalmente, en forma independiente del manejo conservador o quirúrgico, esta condición se asocia con tasas de morbilidad y mortalidad entre 43 y 50%.³ Los hallazgos fisiopatológicos de la bilhemia incluyen un daño hepático grave por desace-

leración, con ruptura de venas hepáticas y conductos biliares intrahepáticos, con formación de un hematoma extenso y necrosis de parénquima hepático. La reabsorción progresiva de la cavidad necrótica ocurre días después del daño original, y hay paso de bilis desde los conductos biliares rotos a las venas intrahepáticas por la diferencia de presiones entre ambos sistemas. La presión baja o negativa en la vena cava, los gradientes de presión de 15 a 20 cm de agua entre las vías biliares y el sistema venoso, permite que el flujo biliar transite libremente al sistema de venas suprahepáticas y al corazón.^{4,5} Esta inversión del gradiente de presión puede incrementarse por obstrucción del flujo biliar. En una gran serie de pacientes con ictericia obstructiva, la presión de las vías biliares intrahepáticas fue invariablemente mayor que en la vena hepática.⁶

Aunque esta patología es rara, se considera peligrosa; de los 50 pacientes reportados en la literatura, 25 han muerto por esta razón. La causa dominante de la bilhemia en estos casos es el traumatismo. En 23 casos fue traumatismo cerrado y en 14 iatrogénico, de los cuales ocho casos fueron secundarios a colangiografía percutánea transhepática, tres a biopsia de hígado y tres a manipulación durante la cirugía. Los síntomas predominantes son ictericia, con incremento rápido en los niveles séricos de bilirrubina, pero sin elevación de enzimas hepáticas. Con relación al diagnóstico, el mejor método para demostrar que hay una fístula biliovenosa es la colangiografía endoscópica que permite observar la dirección del flujo.^{3,4} La arteriografía generalmente no es diagnóstica, pero la gammagrafía puede ser de utilidad.⁷

El principal propósito del tratamiento es liberar la obstrucción ductal ya sea mediante la práctica de esfinterotomía endoscópica de papila de Vater o, en caso de que el proceso se localice en áreas proximales de la vía biliar, mediante un drenaje biliar percutáneo o, preferentemente, drenaje nasobiliar con succión continua. Este abordaje puede, al menos, generar alivio temporal y en ocasiones cierre de la fístula. Un efecto más prolongado puede obtenerse mediante la colocación de una endoprótesis biliar.^{2,4,5}

En los últimos 10 años, el tratamiento conservador se ha considerado como estándar en el daño hepático complejo.^{8,9} Algunos de los cambios más significativos incluyen el uso de tomografía computada de abdomen para detección y clasificación de lesiones, para el manejo no quirúrgico, así como el uso de laparotomía exploradora con reoperación programada y "empaquetamiento" perihéptico para control de hemorragia.¹⁰⁻¹²

La bilhemia es más dañina cuando gran cantidad de bilis acumulada penetra súbitamente al torrente sanguíneo generando embolias a riñón y pulmón.

DISCUSIÓN

La revisión de la literatura hasta el año 2000 muestra 50 casos reportados de bilhemia, cuya causa dominante es el traumatismo con mortalidad de 50%. Las principales causas reportadas son el traumatismo hepático cerrado y lesiones iatrogénicas atribuibles a procedimientos intervencionistas del tipo de colangiografía percutánea transhepática, biopsia de hígado, manipulaciones quirúrgicas o colocación de TIPS^{2-7,14} y algunos reportes lo relacionan con procesos infecciosos localizados.¹⁵ Si con el traumatismo hepático se genera comunicación entre el tracto biliar y los vasos sanguíneos, ésta puede ser de dos tipos: flujo de sangre hacia los conductos biliares (hemobilia) o de la bilis hacia el torrente circulatorio (bilhemia). Esta última es una complicación potencialmente mortal, relacionada al efecto trombogénico de la bilis, así como a su potencial emboligénico.¹⁶ Dicha dirección de flujo dependerá del gradiente de presión entre los dos sistemas.

Los hallazgos clásicos de la bilhemia es un incremento dramático en los niveles séricos de bilirrubina directa, con resto de pruebas de función hepática normales o discretamente elevadas. El método que permite demostrar la fístula biliovenosa es la CPE, que permite además seguir la dirección del flujo.

Nuestro paciente desarrolla una fístula biliovenosa demostrada mediante CPE, en el postoperatorio, mediante la colecistectomía con exploración de vías biliares sin accidentes transoperatorios ni antecedente traumático reciente ni antiguo. Llama la atención la existencia de zona quística en el segmento VIII del hígado; pudo corresponder a un absceso sin precisar etiología, posiblemente piógeno, basado en fiebre, ataque al estado general y leucocitosis, que generó una cavidad necrótica con daño subsiguiente a conductos biliares y vasos venosos hepáticos, con la formación del trayecto fistuloso y paso de bilis a torrente sanguíneo por la diferencia de presiones entre uno y otro sistemas. Esto aunque no tiene una base anatomopatológica, es la única explicación que encontramos para la formación de dicho fenómeno. Es el primer caso, en nuestro conocimiento, de bilhemia de origen no traumático. Con esto se reafirma que la CPE es el método diagnóstico ideal.

El tratamiento de la bilhemia dependerá de las condiciones del paciente, el mecanismo fisiopatológico y la

reserva funcional hepática. A partir del reporte del cierre espontáneo de la fistula biliovenosa tres semanas después del traumatismo,³ el manejo conservador ha sido aplicado en casos seleccionados. Debido a que el objetivo del manejo de la bilhemia es disminuir la presión intraluminal en los conductos biliares para neutralizar el gradiente de presión e impedir el flujo de bilis a través de la fistula, nuestro caso demuestra que la endoscopia terapéutica con CPE, esfinterotomía endoscópica y drenaje biliar puede ser realizada con seguridad en este tipo de paciente.^{4,5,14} Nuestro paciente mostró disminución rápida de los niveles séricos de bilirrubina y al séptimo día cierre del trayecto confirmado por la colangiografía realizada a través del mismo catéter nasobiliar.

En el aspecto quirúrgico, clásicamente son tres los procedimientos que se han descrito en el manejo de la bilhemia postraumática: a) resecciones parciales de hígado, incluyendo la cavidad necrótica, b) drenaje de la colección y drenaje de la vía biliar con succión continua mediante sonda en T; y c) drenaje externo de la cavidad necrótica con creación de una fistula biliar percutánea.^{3,5,14,17}

Concluimos que la bilhemia puede ser condicionada a un origen no traumático, como en el presente caso, y que la endoscopia terapéutica puede generar cierre de la fistula, evitando procedimientos quirúrgicos mayores. Es necesario individualizar a cada paciente para definir su fisiología y mejor abordaje terapéutico.

REFERENCIAS

1. Sandblom P. Hemorrhage into the biliary tract following trauma: "traumatic hemobilia". *Surgery* 1948; 24: 571-86.
2. Sears RJ, Ishitani MB, Bickston SJ. Endoscopic diagnosis and therapy of a case of bilhemia after percutaneous liver biopsy. *Gastrointest Endosc* 1997; 46: 276-79.
3. Glaser K, Wetscher G, Pointner R, et al. Traumatic bilhemia. *Surgery* 1994; 116: 24-7.
4. Sandblom P, Jakobsson B, Lindgren H, Lunderquist A. Fatal bilhemia. *Surgery* 2000; 127: 354-7.
5. Gable DR, Allen JW, Harrell DJ, Carrillo EH. Endoscopic treatment of posttraumatic "bilhemia": case report. *J Trauma* 1997; 43: 534-7.
6. Wiechel KI. Percutaneous transhepatic cholangiography: technique and complications, with studies of the hepatic venous and biliary tract pressures, the chemical changes in blood and bile and clinical research in a series of jaundiced patients. *Acta Chir Scand* 1964; 99: 330.
7. Francois D, Walrand S, Van Nieuwenhuysse JP, de Ville de Goyet H, Pauwels S. Hepatobiliary scintigraphy in a patient with bilhemia. *Eur J Nucl Med* 1994; 20: 1020.
8. Pachter HL, Knudson MM, Esrig B, et al. Status of nonoperative management of blunt hepatic injuries in 1995: a multicenter experience with 404 patients. *J Trauma* 1996; 40: 31.
9. Roche B, Mentha G, Bugman P, et al. Intrahepatic biliary lesions following blunt trauma liver in children: is nonoperative management or conservative operative always safe? *Eur J Pediatr Surg* 1993; 3: 209.
10. Pachter HL, Feliciano DV. Complex hepatic injuries. *Surg Clin North Am* 1996; 76: 763.
11. Richardson JD, Polk HC. Reoperation for trauma (editorial). *Ann Surg* 1995; 22: 1.
12. Cue JL, Creyer HG, Miller FB, et al. Packing and planned reexploration for hepatic and retroperitoneal hemorrhage: critical refinements of a useful technique. *J Trauma* 1990; 30: 1007.
13. Brozinsky S, De soto-Lagraix F, Jiménez FA, Ostrowiz A. Bile emboli: a complication of PTD. *J Clin Gastroenterol* 1981; 3: 135.
14. Spahr L, Sahai A, Labie R, et al. Transient healing of TIPS-induced biliovenous fistula by PTFE-covered stent graft. *Dig Dis Sci* 1996; 41: 2229-32.
15. Rankin R, Vellet D. Portobiliary fistula: occurrence and treatment. *Can Assoc Radiol J* 1991; 42: 55-9.
16. Kihira T, Konishi T, Shiraishi T, et al. Fatal bile pulmonary embolism following percutaneous transhepatic cholangiodrainage. Case report and literature review. *Angiology* 1993; 44: 725-30.
17. Briani GF, Pederzoli P, Orcalli F, et al. Bilemia diagnosi e trattamento conservativo a proposito di un caso complicato con ascesso hepatico. *Chir Ital* 1983; 35: 965-71.