

Fístula arterioportal: rara causa de hemorragia digestiva alta secundaria a hipertensión portal no cirrótica

Arterio-portal fistula: a rare cause of upper gastrointestinal bleeding secondary to non-cirrhosis portal hypertension

Elías D. Olarte Amador¹, Raúl A. Gómez¹, Oscar Andriani², Issac Cheong¹

RESUMEN

La fístula arterioportal (FAP) es un hallazgo vascular infrecuente que origina hipertensión portal no cirrótica (HPNC) de categoría intrahepática presinusoidal. La etiología puede ser variada (congénita, traumática, asociada a tumores hepáticos o iatrogénica) y en la mayoría de los casos, el tratamiento es la embolización arterial hepática (EAH). Se presenta un caso de una mujer portadora de FAP iatrogénica secundaria al tratamiento de enfermedad de Caroli, con inicio brusco de signos de hipertensión portal con hemorragia digestiva, ascitis y diarrea. El eco-Doppler hepático fue compatible con hipertensión portal, y la tomografía computarizada evidenció la fístula entre la arteria hepática y la vena porta. Se realizó tratamiento endovascular de la anomalía arteriovenosa con embolización arterial selectiva intrahepática, con mejoría clínica inmediata.

Palabras clave: fístula arterioportal, hipertensión portal, várices esofágicas, enfermedad de Caroli, embolización arterial hepática.

ABSTRACT

Arterio-portal fistula (APF) is a rare vascular finding that causes non-cirrhotic portal hypertension (NCPH) of intrahepatic-presinusoidal category. The etiology can be varied (congenital, traumatic, associated with liver tumors or iatrogenic) and in most cases, treatment consists in arterial hepatic embolization (AHE). We present the case of a woman carrier of iatrogenic APF secondary to treatment of Caroli's disease, with sudden onset of signs of portal hypertension, with gastrointestinal bleeding, ascites and diarrhea. Hepatic Echo-Doppler was compatible with portal hypertension, and the CT scan showed the fistula between the hepatic artery and portal vein. Endovascular treatment of the arteriovenous anomaly was performed with intrahepatic selective arterial embolization, with immediate clinical improvement.

Keywords: arterial-portal fistulas, portal hypertension, esophageal varices, Caroli's disease, hepatic arterial embolization.

Fronteras en Medicina 2020;15(2):122-125. <https://DOI.org/10.31954/RFEM/202002/0122-0125>

“Cuanto mayor es la ignorancia, mayor es el dogmatismo”
William Osler (1849-1919)

INTRODUCCIÓN

La fístula arterioportal (FAP) es una causa rara de hipertensión portal no cirrótica (HPNC). Su presentación clínica es proteiforme, desde ausencia de

síntomas o desarrollo de colestasis, ascitis y sangrado digestivo por várices esofágicas secundarias a hipertensión portal cuando la fístula se da entre la arteria hepática y la vena porta. Existen casos descritos de insuficiencia cardíaca si hay comunicación anómala entre la arteria y las venas hepáticas¹. El tratamiento inicial de preferencia es la embolización selectiva con diferentes técnicas por arteriografía hepática. En casos refractarios se han descrito desde el tratamiento quirúrgico con ligadura de vasos nutricios, la hepatectomía e incluso el trasplante hepático como opción terapéutica^{2,3}.

Se presenta el caso de una mujer adulta con enfermedad de Caroli (EC) desde la infancia y múltiples procedimientos sobre el hígado, signos de hipertensión portal de instauración abrupta hemorragia digestiva por varices esofágicas, ascitis y diarrea, tres semanas previo a su internación en la institución. Se confirmó el diagnóstico mediante tomografía computarizada (TC) con contraste intravenoso y arteriografía hepática y se logró resolución de la FAP por terapia endovascular.

1. Unidad de Terapia Intensiva.

2. Cirugía Hepatobiliar.

Sanatorio de los Arcos. CABA. Rep. Argentina.

Correspondencia: Elías D. Olarte Amador. Unidad de Terapia Intensiva, Sanatorio de los Arcos, Av. Juan B. Justo 909, C1425FSD, CABA. Rep. Argentina. Tel.: 011 4778-4500. olartea@hotmail.com

Los autores declaran no tener conflictos de intereses.

Recibido: 15/04/2020 | Aceptado: 30/04/2020

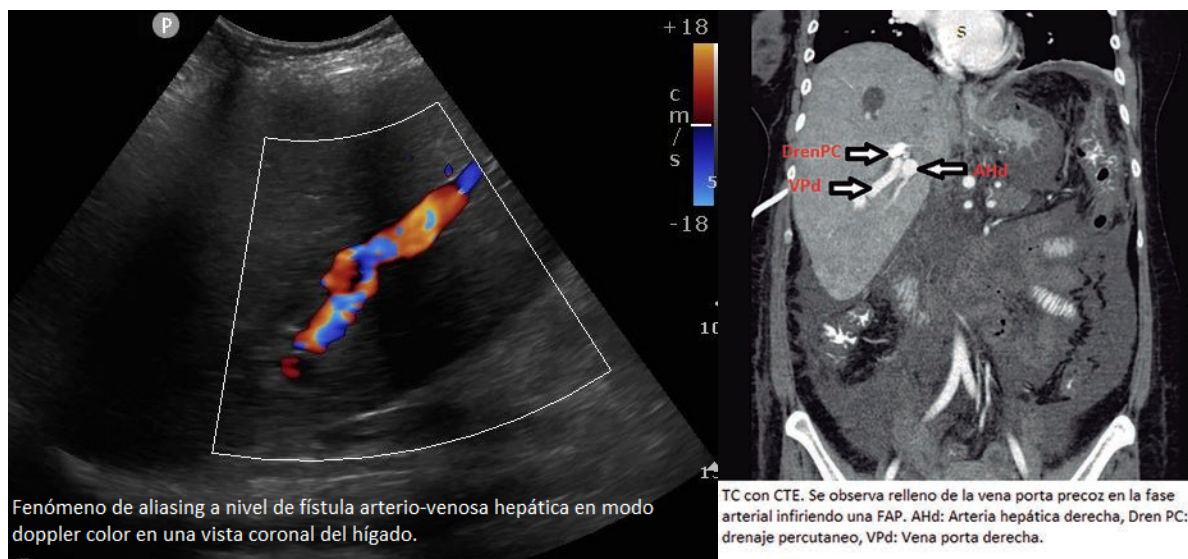
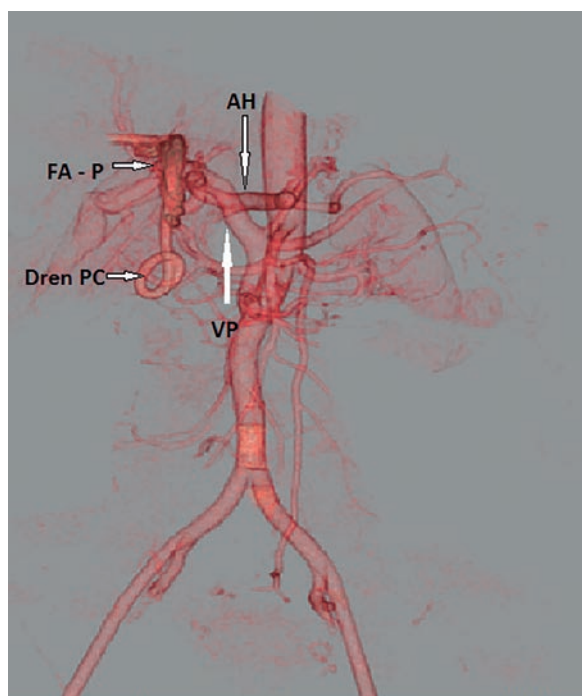


Figura 1.



Reconstrucción por Angio TC venoso y arterial: Se evidencia fistula arterio portal en relación a Drenaje PC.

Figura 2.

CASO CLÍNICO

Mujer de 43 años con antecedentes de EC, colédoco Todani 4 A (quiste de colédoco y dilataciones intrahepáticas) con resección de colédoco y hepático-yeyuno anastomosis en la infancia y luego hepatectomía izquierda por episodios de colangitis, medicada con ácido ursodesoxicólico. Presentó varias intercurrentes infecciosas por colangitis a repetición y abscesos hepáticos con requerimiento de drenajes percutáneos de la vía biliar. Además, requirió dilataciones sostenidas (según protocolo de

Roma), realizada 4 meses previo a la actual internación. Ingresó a nuestro centro con una derivación biliar interno-externa por nuevo episodio de colangitis y colestasis, manifestando previo a la internación ascitis progresiva de tres semanas de evolución, diarrea (8-10 deposiciones día), sin moco ni sangre. Desarrolló hemorragia digestiva alta al cuarto día de internación, evidenciadas por videoendoscopia digestiva alta (VEDA), vórices esofágicas grado II-III, realizando ligadura con 3 bandas. A las 24 horas, resangrado con necesidad de empleo de 5 bandas adicionales, siendo luego admitida a la Unidad de Cuidados Intensivos (UCI) e iniciando terlipresina. Una ecografía Doppler hepática evidenció hipertensión portal (fenómeno de *aliasing* a nivel de la vena porta) sin trombosis suprahepática (Figura 1). La TC helicoidal con contraste yodado mostró en la fase arterial llenado precoz de la vena porta derecha e incongruencia del calibre entre la porta y la arteria hepática, infiriéndose una FAP (Figura 2 y 3). El parénquima hepático mostró múltiples imágenes líquidas en relación a la vía biliar intrahepática, con similares hallazgos por resonancia magnética, incluyendo las dilataciones de la vía biliar e imágenes compatibles con abscesos.

Ante la sospecha de FAP (probablemente en relación con la colocación del drenaje por vía percutánea de la vía biliar) y la presencia de signos de hipertensión portal con ascitis y sangrado por vórices esofágicas, se realizó arteriografía hepática selectiva donde se confirmó la presunción diagnóstica y se practicó tratamiento con embolización con *coils* y Gelfoam TM de la FAP derecha durante el mismo procedimiento. Evolucionó con mejoría rápida de la diarrea, de la ascitis y sin nuevos episodios de sangrado, sin complicaciones inmediatas al procedimiento. Una TC de control no reveló evidencia de flujo arterio-portal patológico.

Los datos analíticos fueron los siguientes: hemograma, hematocrito 21%, Hb 7.1 g/dl, con recuen-

to de leucocitos, fórmula y plaquetas normales. Coagulación, actividad de protrombina del 72%; uremia de 6 mg/dl, creatinina de 0.6 mg/dl; sodio de 141 mEq/l, potasio de 4.4 mEq/l, cloro de 98 mEq/l, bilirrubina total de 2.97 mg/dl (VN: 0.2-1), bilirrubina directa de 2,5 mg/dl (VN: 0.1-0.5), fosfatasa alcalina 1082/UI (VN: 40-150), aspartato aminotransferasa 30 UI/l (VN: 0-55), alanino aminotransferasa 33 UI/l (VN: 5-34), proteínas totales 5.41 g/dl, albúmina sérica de 2.5 g/dl (VN: 3.5-5); glucosa, colesterol total y triglicéridos normales. Se descartó origen infeccioso del cuadro diarreico. Estudio de líquido ascítico: GASA > 1.1, con proteínas totales de 2 g/dl, albúmina 0.3 g/dl, glóbulos blancos 158/mm³ con fórmula 10% de segmentados en líquido peritoneal. Dosaje de factor V normal.

En controles de seguimiento la paciente no presentó alteración de la síntesis hepática, con *score* pronóstico de Child-Pugh (CH): C 10 y *Model for End Stage Liver Disease* (MELD) de 14 al momento del ingreso.

DISCUSIÓN

La FAP fue reportada por primera vez en 1889 por Goodhart⁴. Preger fue el primero en describir FAP asociada a biopsia hepática percutánea en 1967, su tasa de ocurrencia va en ascenso debido al aumento de procedimientos invasivos y mejores tasas de supervivencia⁵. La tasa actual de FAP secundaria a biopsia hepática ha sido reportada en la bibliografía desde 0.008% a 5.4%^{5,6}. En otras series se han reportado incidencias del 5 al 10%.

La mayoría de las FAP son asintomáticas y solo requieren vigilancia, pero en raras ocasiones puede aumentar de tamaño y tener síntomas clínicamente importantes⁷. La FAP se clasifica, según Guzmán et al., en base a su etiología, tamaño, localización, historia natural y las alteraciones fisiológicas, en los siguientes tipos⁸:

- Tipo 1: Fístulas de pequeño tamaño, intrahepáticas y asintomáticas. En su mayoría son secundarias a biopsias hepáticas percutáneas.
- Tipo 2: Fístulas de mayor tamaño y, en consecuencia, generan una mayor presión portal. Pueden ser intrahepáticas o extrahepáticas y suelen ser secundarias a traumatismos abdominales.

- Tipo 3: Fístulas congénitas con hipertensión portal grave en la infancia.

Las causas de FAP en orden de frecuencia son las siguientes: traumatismo hepático (28%), lesión iatrogénica (16%), congénita (15%), tumor hepático maligno (15%) y rotura de un aneurisma de la arteria esplénica (14%). El hepatocarcinoma es el tumor hepático que con mayor frecuencia (10%) ocasiona FAP⁹⁻¹⁰. Otras causas menos frecuentes son la cirrosis, hemangiomas, abscesos hepáticos, síndrome de Budd-Chiari⁹⁻¹³.

La mayoría de los pacientes con FAP permanecen asintomáticos; en caso contrario presentan signos y síntomas secundarios a la hipertensión portal. Con presentación clínica como hemorragia digestiva alta (33%), ascitis (26%), insuficiencia cardíaca congestiva (4.5%) y diarrea (4.5%). Hasta en un 33% de los casos aparece un frémito en la parte superior del abdomen, sobre todo si la fístula mide más de 4 mm⁷⁻¹³.

Su diagnóstico suele ser incidental y la TC dinámica con contraste intravenoso es la técnica de elección, que demostrará un relleno precoz del sistema portal en fase arterial; la ecografía es útil para el cribado y seguimiento, la angiografía es útil para el diagnóstico cuando hay contraindicación para la tomografía⁹.

La primera opción de tratamiento es la EAH, en la mayoría de las veces resuelve los síntomas de hipertensión portal. Las indicaciones de tratamiento son: presencia de una fístula sintomática, localización extrahepática, aumento del tamaño de la fístula al mes de seguimiento y de origen congénito. El cierre se puede realizar por técnicas mecánicas con *coils*, balón o agentes líquidos como alcohol etilpolivinilo (Onix) o cianoacrilato⁷⁻¹⁵. Hay reporte en la bibliografía de complicaciones como recidiva de la fístula, infarto hepático, colangitis isquémica, colecistitis y trombosis de la vena porta¹⁵.

A modo de conclusión, presentamos una paciente con múltiples antecedentes hepatobiliares, que desarrolla hipertensión portal presinusoidal en forma abrupta, con hemorragia por varices esofágicas secundaria a FAP desarrollada como consecuencia de colocación de un drenaje percutáneo de la vía biliar requerido por complicaciones de su enfermedad de base. Se realizó tratamiento EAH con *coils* y gelfoam con buena respuesta en forma temprana, sin complicaciones. No se encontraron casos reportados en la literatura de la asociación de FAP con enfermedad de Caroli.

BIBLIOGRAFÍA

1. Caselitz M, Wagner S, Chavan A, et al. Clinical outcome of trans-femoral embolisation in patients with arteriovenous malformations of the liver in hereditary haemorrhagic telangiectasia (Weber-Rendu-Osler disease). *Gut* 1998;42:123-6.
2. Kobayashi S, Asano T, Kenmochi T, et al. Arterio-portal shunt in liver rescued by hepatectomy after arterial embolization. *Hepato-gastroenterology* 2001(42);48:1730-2.
3. Bauer T, Britton P, Lomas D, Wight DG, Friend PJ, Alexander GJ. Liver transplantation for hepatic arteriovenous malformation in hereditary haemorrhagic telangiectasia. *J Hepatol* 1995;22:586-90.
4. Goodhart JF. Arterio-venous aneurysm of splenic vessels with thrombosis of mesenteric veins and localized acute colitis. *Trans Path Soc Engl* 1889;40:67-72.

5. Preger L. Hepatic arteriovenous fistula after percutaneous liver biopsy. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1967;101:619-20.
6. Okuda K, Musha H, Nakajima Y, et al. Frequency of intrahepatic arteriovenous fistula as a sequela to percutaneous needle puncture of the liver. *Gastroenterology* 1978;74:1204-7.
7. Kumar A, Ahuja CK, Vyas S, et al. Hepatic arteriovenous fistulae: role of interventional radiology. *Dig Dis Sci* 2012;57(19):2703-12.
8. Guzman EA, McCahill LE, Rogers FB. Arteriportal fistulas: Introduction of a novel classification with therapeutic implications. *J Gastrointest Surg* 2006;10(4):543-50.
9. Vauthey JN, Tomczak RJ, Helmbert T, et al. The arteriportal fistula syndrome: Clinicopathologic features, diagnosis and therapy. *Gastroenterology* 1997;113(4):1390-401.
10. Nagasue N, Kanashima R, Kobayashi M, Inokuchi K. Hepatoportal arteriovenous fistula in primary carcinoma of the liver. *Surg Gynecol Obstet* 1977;145(4):504-8.
11. Lumsden AB, Allen RC, Creeram S, Atta H, Salam A. Hepatic arteriportal fistula. *Am Surg* 1993;59:722-6.
12. Hernández M, González I, Llop E, et al. Fístula arteriportal, una causa rara de hipertensión portal pre-sinusoidal. *Gastroenterol Hepatol* 2016;39(1):43-8.
13. Nookala A, Saberi B, Ter-Oganesyan R, Kanel G, Duong P, Saito T. Isolated arteriportal fistula presenting with variceal hemorrhage. *World J Gastroenterol* 2013;19(17):2714-7.
14. Kakati BR, Pedersen MR, Chen SY, Hirsch KS, Berggreen PJ, Seetharam AB. Hepatic Arteriportal Fistula Presenting as Gastric Variceal Hemorrhage. *J Gastrointest Liver Dis* 2014;23(2):211-4.
15. Tasar M, Gulec B, Bozlar U, Saglam M, Ugurel M, Ucoz T. Intrahepatic arteriportal fistula and its treatment with detachable balloon and transcatheter embolization with coils and microspheres. *Clin Imaging* 2005;29(5):325-30.