

Hemobilia como causa infrecuente y grave de hemorragia digestiva alta

Hemobilia as a rare and serious cause of upper gastrointestinal bleeding

Roberto Pérez Menéndez^{1*} <https://orcid.org/0000-0002-4964-3651>

Mario Jesús García Ayala¹ <https://orcid.org/0000-0001-7499-240X>

Angel Obregón Moreno¹ <https://orcid.org/0000-0001-9967-5814>

¹Hospital Clínico Quirúrgico “Hermanos Ameijeiras”. La Habana, Cuba.

*Autor para la correspondencia. lsantacruz@infomed.sld.cu

RESUMEN

Introducción: La hemobilia es por definición una causa de hemorragia digestiva alta, donde existe una comunicación de la vía biliar en cualquiera de sus segmentos con vasos sanguíneos que desembocan a través de la ampolla de Vater. Su presentación es infrecuente y no sospechada en la práctica clínica diaria de gastroenterólogos, cirujanos, hepatólogos, clínicos e intensivistas, con un difícil manejo diagnóstico-terapéutico y una elevada morbi-mortalidad.

Objetivo: Describir tres casos de pacientes con diagnóstico de hemobilia.

Desarrollo: Se presentan tres casos con hemobilia que tuvieron una elevada mortalidad y con diferente etiología; en el primer caso por trombosis de la arteria hepática postrasplante hepático, el segundo secundario a un colangiocarcinoma de la unión hepatocística y el tercero con diagnóstico de un aneurisma de la arteria hepática derecha confirmado y parcialmente tratado por angiotomografía, posteriormente intervenido quirúrgicamente y único sobreviviente.

Conclusiones: Resultaron tres casos con hemobilia de diferentes causas, con una elevada mortalidad por la intensidad de la hemorragia digestiva alta y las comorbilidades asociadas, además de señalar que ninguno de ellos presentó la tríada clásica reportada por Quincke.

Palabras clave: hemobilia; hemorragia digestiva alta; aneurisma arterial; colangiocarcinoma.

ABSTRACT

Introduction: Hemobilia is, by definition, a cause of upper gastrointestinal bleeding, where there is a communication of the bile duct in any of its segments with blood vessels that flow through the ampulla of Vater. It is rare and it is not suspected in the daily clinical practice of gastroenterologists, surgeons, hepatologists, clinicians and intensivists, hence the diagnostic-therapeutic management is difficult and it has high morbidity and mortality.

Objective: To report three cases of patients with a diagnosis of hemobilia.

Case report: We report three cases of hemobilia of high mortality and different etiology. The first case had post-liver transplantation hepatic artery thrombosis, the second had a secondary cholangiocarcinoma of the hepatocystic junction and the third had diagnosis of confirmed right hepatic artery aneurysm partially treated by CT angiography, subsequently operated on and the only survivor.

Conclusions: These three hemobilia cases had different causes, and high mortality due to the intensity of the upper gastrointestinal bleeding and the associated comorbidities, in addition to noting that none of them exhibited the classic triad reported by Quincke.

Keywords: hemobilia; upper gastrointestinal bleeding; arterial aneurysm; cholangiocarcinoma.

Recibido: 23/08/2020

Aprobado: 21/09/2020

Introducción

La hemobilia (HB) fue descrita inicialmente por Francis Glisson en 1654⁽¹⁾ y posteriormente caracterizada por Quincke en 1871⁽²⁾ por su conocida tríada clásica de dolor en cuadrante abdominal superior derecho a veces tipo cólico, e ictericia de tipo obstructiva y sangrado digestivo alto generalmente en forma de melena. Sus principales causas son los traumatismos accidentales o los quirúrgicos, poscolecistectomía con coledocotomía^(3,4,5) tras la colocación de tubos de Kehr o sonda en T,⁽⁶⁾ por ruptura intraductal de un absceso hepático, de quistes hepáticos benignos o tumores malignos del hígado y de las vías biliares. También puede presentarse secundario a lesiones vasculares por ruptura de aneurismas, formación de fístulas arterio-venosas y por trombosis arteriales,^(7,8,9,10,11,12) la litiasis vesicular y/o coledociana (de causa mecánica), el parasitismo hepatobiliar. En la actualidad predominan las llamadas iatrogénicas que aparecen luego de una biopsia hepática percutánea (hemoperitoneo, hemorragia intrahepática o subcapsular, de aparición inmediata o hasta después de nueve meses), posterior a la colecistectomía laparoscópica,^(13,14) asociada a la colocación de un drenaje biliar percutáneo y posterior a la realización de una Colangiopancreatografía Retrógrada Endoscópica (CPRE) con sus técnicas terapéuticas afines; también después de la colocación de Shunts Porto-Sistémico Transyugular (TIPS) y como complicación del trasplante hepático.^(8,15,16)

Al ser sospechada una hemobilia, es imprescindible para lograr su diagnóstico de certeza, aplicar un adecuado método clínico que incluya un buen interrogatorio, indagar en los antecedentes patológicos personales, realizar un examen físico exhaustivo y para su confirmación, realizar diversos exámenes complementarios, entre los que destacan por el sangrado digestivo alto, la realización de una endoscopia digestiva superior, la que descartará otras causas de hemorragia digestiva alta (HDA) ajenas o concomitantes con la posible HB, esta última localizada específicamente a nivel de la segunda porción del duodeno muy relacionada con el área papilar mayor a forma de coágulo de reciente formación o al confirmarse la salida de sangre fresca babeante o intermitente a través de ella.⁽¹⁷⁾

Ante esta entidad la angiogramografía ocupa la “regla de oro” por sus posibilidades diagnósticas, pero sobre todo por su perfil terapéutico, al permitir realizar una embolización transarterial selectiva o realizar la colocación de microcoils con el propósito de ocluir el vaso sangrante comunicante con el árbol biliar y, por último, en caso de fallo, estaría la opción quirúrgica definitiva.

El objetivo de este trabajo fue describir tres casos de pacientes con diagnóstico de hemobilia.

Presentación de los casos

Presentamos tres nuevos casos con hemobilia de etiología, comorbilidades y evolución clínica diferentes.

Caso N° 1

Paciente N.R.R., masculino de 49 años de edad con antecedentes de cirrosis hepática de etiología alcohólica de dos años de evolución, con varios cuadros de encefalopatía de diferentes grados que requirieron su hospitalización y a realizarle un trasplante hepático el 23 de junio de 2013 con un tiempo quirúrgico laborioso de 8 h, con pérdida importante de volemia e inestabilidad hemodinámica que requirió administración de concentrados de glóbulos y plasma fresco. En la sala de cuidados intensivos a las 48 h de trasplantado se constata un sangrado moderado activo por los drenajes abdominales y sitios de punción por lo que es intervenido quirúrgicamente confirmándose

un hemoperitoneo moderado. Posteriormente aparece disfunción renal y pulmonar con derrame pleural derecho. El 2 de julio de 2013 se le indica una colangiopancreatografía retrógrada endoscópica por la sospecha de fístula biliar externa que fue confirmada realizándose esfinterotomía y colocación de una prótesis biliar. Tres semanas después (23 de julio de 2013) comienza con fiebre elevada y se confirma, por ultrasonido abdominal, un absceso hepático subcapsular que se drena por vía percutánea guiado por ecografía y se continúa con antibioticoterapia en correspondencia con los resultados del cultivo realizado. En la ecografía evolutiva del 9 de septiembre de 2013, se observan múltiples abscesos hepáticos parenquimatosos y se decide extraer la prótesis biliar anteriormente colocada por estar obstruida. El día 12 de septiembre de 2013 comienza a presentar inestabilidad hemodinámica con disminución progresiva de las cifras de hemoglobina y hematocrito por lo que se realizó endoscopia digestiva superior de urgencia que demostró un sangrado digestivo alto a forma de HB. Se indica arteriografía confirmándose una trombosis total de la arteria hepática. Evoluciona en estado crítico cuya única posibilidad sería un re-trasplante hepático, contraindicado en esos momentos por un fallo multi-orgánico secundario a shock hipovolémico y fallece luego de 52 días de estadía hospitalaria.

Caso N° 2

Paciente E.V.R., de 82 años de edad, masculino con antecedentes patológicos de hipertensión arterial y diabetes mellitus tipo II, de 15 y 10 años de evolución respectivamente, así como cirrosis hepática alcohólica con historia de múltiples sangrados digestivos que requirieron hospitalización, el último de ellos un año antes a la fecha de este ingreso que ocurrió el 7 de agosto de 2013 que fue motivado por *melenas* de un mes de evolución que motivaron la administración de múltiples transfusiones de glóbulos rojos en un hospital de su provincia de origen, Pinar del Río, donde además, le realizan un estudio endoscópico digestivo superior encontrando una úlcera del bulbo duodenal además de pangastritis y duodenitis eritematoerosiva severas.

Es remitido a nuestro centro por una evolución tórpida e ingresado en una unidad de cuidados intensivos polivalentes. El 15 de agosto de 2013 se le realiza una primera endoscopia de urgencia donde se observó sangrado activo intermitente, abundante y con coágulos recientes que salían espontáneamente a través de la papila duodenal mayor y sin encontrar signos endoscópicos de hipertensión portal, observando una gastroduodenitis eritematosa y la cicatriz de la úlcera bulbar anteriormente reportada, concluyéndose este proceder como una HB aguda y severa. Continuó con inestabilidad hemodinámica en los días siguientes lo que motivó una segunda revisión endoscópica de urgencia el 18 de agosto de 2013, confirmándose los hallazgos del primer estudio endoscópico. Fallece ese mismo día en un cor pulmonale agudo por trombo-embolismo pulmonar de ramas gruesas en el curso de una hemorragia gastrointestinal. En la necropsia además de confirmar la cirrosis hepática a pequeños nódulos se encontró un colangiocarcinoma a nivel de la unión hepatocística.

Caso N° 3

Paciente F.C.A. de 37 años de edad, hipertenso tratado con enalapril 20 mg/día, operado por colecistitis alitiásica en fase comenzante de plastrón el 10 de marzo de 2014 que precisó de una colangiografía transoperatoria donde se aprecia sección total del colédoco y parcial del conducto hepático común, lo que motivó a realizarle una anastomosis término-terminal del colédoco y dejándose una sonda en T, egresando 15 días después de operado. Un día después del alta comienza a presentar hemorragia de 1000 mL por dicha sonda, dolor en hipocondrio derecho que cede con analgesia y hemodinámicamente estable. Es reingresado, el 28 de marzo de 2014 y se le realiza una angio-TAC con cateterismo selectivo de la rama arterial hepática derecha, informándose la presencia de un pseudoaneurisma traumático de 27 x 22 mm con lento reflujo y con turbulencia asociada, donde se instiló con micro-catéter angiográfico una mezcla de alcohol absoluto (1 mL) y aetoxiesclerol o polidocanol en espuma (3 mL), observándose trombosis parcial de la lesión encontrada. El 29 de marzo de 2014 presentó hematemesis de unos 700 mL con sudoración profusa, frialdad, palidez muco-cutánea y tensión arterial de 60/40 mmHg, colocándole sonda nasogástrica por donde continúa salida de sangre fresca, roja rutilante, por lo

que se le practica una endoscopia digestiva superior de urgencia, observando en la segunda porción duodenal restos hemáticos frescos y un pequeño coágulo recién formado en la ampolla de Vater, sin evidenciar otras causas de sangrado digestivo alto, se concluyó como una Hemorragia Digestiva Alta reciente no activa dependiente de una Hemobilia y que requirió tratamiento quirúrgico, ligándose la arteria hepática derecha, con evolución posterior satisfactoria e incorporado a su medio social y laboral con seguimiento multidisciplinario por consulta externa en nuestro centro.

Discusión

En esta serie de tres pacientes masculinos, nos llamó la atención además de la sucesión de ellos en tan poco tiempo, la elevada mortalidad y su forma clínica de presentación, ya que en ninguno estuvo presente la tríada clásica (dada por dolor abdominal en cuadrante superior derecho, hemorragia digestiva alta e ictericia) descrita por Quincke para la HB.⁽²⁾ Igualmente resultó notorio que los tres tuvieron causas diferentes de HB, uno por trombosis de la arteria hepática, posterior a un trasplante hepático, otro por causa neoplásica demostrada por necropsia (colangiocarcinoma de la unión hepatocística) y el único sobreviviente con una dilatación aneurismática de la rama derecha de la arteria hepática confirmada por angio-TAC y solucionada quirúrgicamente, luego de fallar la terapéutica radiológica intervencionista. Otro elemento interesante es que ninguno de los tres presentaron una HB leve o moderada donde el tratamiento es conservador o expectante, sino que presentaron *shock* hipovolémico que les provocó un fallo multiorgánico fatal en dos de ellos tal y como se describe en la literatura revisada.^(12,15,16)

La edad osciló en un rango entre los 37 y los 82 años para un promedio de 56 años y en este sentido nos impresiona que esta variable tuvo cierta función en la evolución de estos pacientes, pues el único sobreviviente resultó ser el de menor edad, lo que igualmente cabe decir en cuanto a las comorbilidades como la hipertensión arterial, la diabetes mellitus y la cirrosis hepática con sus trastornos de la coagulación, entre otras complicaciones de esta que al asociarse incrementan la gravedad de esta entidad.

Se han descrito múltiples causas de HB, la que se ha planteado como un tema curioso en la práctica clínica diaria, que además de los traumatismos accidentales o quirúrgicos hepatobiliares, la ruptura intraductal de quistes benignos o de absceso(s) del hígado o de un aneurisma de la arteria hepática y/ o de sus ramas, como producto de la hemorragia secundaria a un tumor biliar, por complicaciones mecánicas de la coledocolitiasis y parásitos a este nivel, secundaria a la realización de procedimientos diagnóstico-terapéuticos donde actualmente, como se describe ocurre una mayor incidencia, tales como, la biopsia hepática percutánea o la dirigida por laparoscopia o por ultrasonido, la colangiografía percutánea con o sin colocación de drenaje biliar externo, luego de una Colangiopancreatografía Retrógrada Endoscópica (CPRE) con sus técnicas afines, la derivación transyugular intrahepática portosistémica (TIPS), así como, posterior a la colecistectomía laparoscópica y luego de un trasplante hepático, procederes que en su mayoría se realizan a diario en nuestro centro y que pueden condicionar una elevación de su incidencia.

Dentro de las técnicas de imágenes no invasivas que son muy importantes al sugerirnos su diagnóstico etiológico están, el ultrasonido convencional para precisar sombras acústicas de litiasis, parasitismo, entre otras y con el estudio doppler se pueden precisar dilataciones vasculares aneurismáticas o algún área de turbulencia vascular. Otros procederes que pueden ser indicados son, la colangiografía magnética y el ultrasonido endoscópico que tienen una significativa relevancia en cuanto a la localización y precisión causal de la HB al ofrecernos el hallazgo de defectos de llenos en un árbol biliar ocupado por coágulos, cálculos, entre otros.^(2,8)

Es importante comentar que al realizar un diagnóstico temprano y un tratamiento eficaz, y pudiera mejorar el pronóstico y la evolución de estos pacientes, teniendo en cuenta que, como hemos comentado la HB suele presentarse de forma severa a forma de hematemesis y/o melena sobre todo si la hemorragia es de origen arterial con amenaza para la vida, pero por otra parte

puede ser imperceptible o de forma insidiosa, presentándose como un sangrado digestivo oculto.^(4,12,13)

Desde el punto de vista diagnóstico, además de un correcto uso del método clínico, tiene una gran importancia la realización de una endoscopia digestiva superior, preferiblemente y ante la alta sospecha de una HB con un equipo de visión lateral (duodenoscopia) que nos permite ubicarnos de frente al área papilar mayor, aunque puede ser suficiente con un equipo de visión frontal que además de localizar el sangrado en forma de coágulo reciente, sangre fresca o sangrado pulsátil a nivel de la segunda porción duodenal en relación con el área papilar mayor, nos permite con mayor claridad descartar otras causas más frecuentes de hemorragia digestiva alta.⁽¹⁶⁾ En centros muy especializados se ha reportado el uso de la colangioscopia y ablación directa con coagulación mediante argón plasma (APC) y/o radiofrecuencia en lesiones vasculares muy poco frecuentes como las descritas en el síndrome de Rendú-Osler-Weber, lo que disminuye los riesgos de futuros episodios de sangrado.^(15,16)

Resulta imprescindible mencionar especialmente la angiotomografía o angio-TAC que es considerada el “gold standard” en cuanto al tratamiento embolizador u obliterante de lesiones vasculares, la que se utilizó en el tercero de nuestros casos, como se describió anteriormente, con resultados parcialmente satisfactorios. La CPRE queda reservada para su realización cuando las condiciones clínicas del enfermo lo permitan y cuando sea demostrado por imágenes, incluyendo el ultrasonido endoscópico, la presencia de coágulos, cálculos, parásitos, entre otros, en el trayecto de la vía biliar extrahepática, con el objetivo de realizar una esfinteromía biliar amplia para lograr la salida espontánea y/o con accesorios propios para la extracción de estos, pues se ha descrito que los coágulos se comportan como un agente anti-fibrinolítico y favorecen la formación de cálculos, además se evitarían otras complicaciones como son la colecistitis, la pancreatitis, la formación de abscesos hepáticos y trayectos fistulosos; igualmente se han colocado prótesis autoexpandibles y plásticas con éxito en el sangrado ductal extrahepático.^(8,9)

Es de señalar que las lesiones vasculares que más se reportan en la literatura son las malformaciones arteriovenosas, las fístulas arteriobiliares y con más frecuencia aneurismas y pseudoneurismas de las ramas de la arteria hepática que transcurren anatómicamente paralelas al árbol biliar a predominio de la derecha.⁽⁴⁾ El pseudoaneurisma de la arteria cística es excepcional y generalmente de origen traumático post colecistectomía, y con el uso del ultrasonido doppler se ha descrito el signo del *Ying-Yang* por su similitud al símbolo oriental, al existir un flujo vascular bidireccional que rodea una litiasis vesicular y se ha reportado de forma exitosa su manejo por cirugía laparoscópica o de mínimo acceso.^(4,9)

El tratamiento está dirigido a detener el sangrado y en este sentido como hemos mencionado la primera elección es la cateterización angiográfica selectiva y la embolización transarterial con una alta tasa de éxito y baja morbimortalidad, pero cuando falla, está contraindicada o no se demuestra el sangrado en la angiografía, entonces queda reservado el tratamiento quirúrgico que está indicado cuando la HB está complicada con colecistitis, para ligar un vaso dañado o extirpar un aneurisma, realizar la ligadura de la arteria hepática derecha o izquierda según el caso e incluso efectuar una hepatectomía parcial de existir una hemorragia intrahepática incontrolable.^(5,17) En nuestra serie al único paciente que sobrevivió se le realizó exitosamente y sin complicaciones la ligadura de la arteria hepática derecha.

Resultó una corta serie de casos con infrecuente hemorragia digestiva alta a consecuencia de una hemobilia, que se presentó en un tiempo menor a un año, todos con una etiología diferente, con un diagnóstico clínico, endoscópico e imagenológico que debemos tener en cuenta en la práctica médica diaria para mejorar la evolución y pronóstico de esta grave condición, como ocurrió en el más joven de nuestros pacientes, único sobreviviente al que se le realizó una ligadura quirúrgica de la arteria hepática derecha satisfactoriamente, egresado e incorporado a su medio familiar, social y laboral en un breve período de tiempo.

Referencias bibliográficas

1. Glisson F. Anatomía hepatis. Cap. 1 en Anatomia Hepatis. London: O. Pullein; 1954. p. 44-63.
2. Chin MW, Enns R. Hemobilia. *Curr Gastroenterol Rep.* 2010;12:121-9. <https://doi.org/10.1007/s11894-010-0092-5>
3. Sandblom P. Hemorrhage into the biliary tract following trauma; traumatic hemobilia. *Surgery.* 1948;24(3):571-86.
4. Asensio L, Álvarez E, Rodríguez-Montes JA. Hemobilia: una complicación poco común de la colecistectomía. *J Neg No Positive Resul.* 2017;2(4):160-4. <https://doi.org/10.19230/jonnpr.1307>
5. Jones PM, Subbarao G. Hemobilia caused by hepatic artery pseudoaneurysm following abdominal trauma. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2015;60:40. <https://doi.org/10.1097/MPG.0b013e31829ce596>
6. Lee YT, Lin H, Chen KY, Wu HS, Hwang MH, Yan SL. Life-threatening hemobilia caused by hepatic pseudoaneurysm after T-tube choledochostomy: report a case. *BMC Gastroenterol.* 2010;10:81-84. <https://doi.org/10.1186/1471-230X-10-81>
7. Kirklin J.W. Treatment of aneurism of the hepatic artery by excision: Report of a case. *Ann Surg.* 1955;142:110-14. <https://doi.org/10.1097/0000658-195507000-00014>
8. Berry R, Han JY, Kardashian AA, La Russo NF, Tabibian JH. Hemobilia: Etiology, diagnosis, and treatment. *Liver Res.* 2018[acceso: 05/05/2020];2(4):200-8. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31308984/>
9. Panno C, Gutiérrez S, Echevarría R. Hemobilia secundaria a pseudoaneurisma de la arteria hepática. *Acta Gastroenterol Latinoam.* 2015[acceso: 05/05/2020];45(2):133-36. Disponible en: <http://www.scielo.org.co/pdf/rcg/v32n2/0120-9957-rcg-32-02-00171.pdf>
10. Arroja B, Canhoto M, Barata P, Goncalves C, Silva F, Cotrim I, *et al.* Hemobilia after pseudoaneurysm of hepatic artery branch. *Rev Esp Enferm Dig.* 2010;102:386-7. <https://doi.org/10.4321/s1130-01082010000600009>
11. Merrett ND, Cosman P, Biankin AV. Education of imaging. Hepatobiliary and pancreatic: iatrogenic hemobilia. *J Gastroenterol Hepatol.* 2008;23:821-22. <https://doi.org/10.1111/j.1440-1746.2008.05450.x>
12. Hernández-González R. Hemobilia: un caso, complicaciones, seguimiento. *Cir Ciruj.* 2003[acceso: 05/05/2020];71:137-44. Disponible en: <https://www.medigraphic.com/pdfs/circir/cc-2003/cc032j.pdf>
13. Bin Traiki TA, Madkhali AA, Hassanian MM. Hemobilia post-laparoscopic cholecystectomy. *J Surg Case Rep.* 2015;2:1-3. <https://doi.org/10.1093/jscr/rju159>
14. Takahiro A, Yuma T, Motoya T, Hiroki S, Hisato H, Satoshi H. Hemobilia a-rare complication after laparoscopic cholecystectomy. *Surgical Case Report.* 2020;6(91):1-6. <https://doi.org/10.1186/540792-020-00837.6>
15. Navuluri R. Hemobilia. *Semin Intervent Radiol.* 2016;33(4):324-31. <https://dx.doi.org/10.1055/s-0036-1593321>
16. Gerson LB, Fidler JL, Cave DR. Clinical guideline: diagnosis and management of small bowel bleeding. *Am J Gastroenterol.* 2015;110(9):1265-87. <https://doi.org/10.1038/ajg.2015.246>
17. Berry R, Han J, Girotra M, Tabibian JH. Hemobilia: Perspective and Role of the Advanced Endoscopist. *Gastroenterol Res Pract.* 2018. <https://doi.org/10.1155/2018/3670739>

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

Contribuciones de los autores

Roberto Pérez Menéndez: Idea original, redacción y revisión del borrador. Revisión de la versión final del documento.

Mario Jesús García Ayala: Revisión y redacción de la versión final del documento.

Angel Obregón Moreno: Revisión de la bibliografía.