

2. Ranasinghe W, Loa J, Allaf N, Lewis K, Sebastian MG. Primary aortoenteric fistulae: The challenges in diagnosis and review of treatment. *Ann Vasc Surg.* 2011;25:386. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2010.09.021>. 386e1-L 386.e5.
 3. Chen L, Ming X, Gu R, Wen X, Li G, Zhou B, et al. Treatment experience of delayed massive gastrointestinal bleeding caused by intra-abdominal arteriointestinal fistula in gastric cancer patients after radical gastrectomy. *World J Surg Oncol.* 2019;17. <http://dx.doi.org/10.1186/s12957-019-1751-0>. 201-019-1751-0.
 4. Honda M, Sakamoto T, Kojima S, Yamamoto Y, Yajima K, Kim DH, et al. Aortoenteric fistula following overlap esophagojejunal anastomosis using lineal staplers for cancer of the esophagogastric junction: a case report. *Surg Case Rep.* 2019;5. <http://dx.doi.org/10.1186/s40792-019-0566-0>. 9-019-0566-0.
 5. Gunji S, Okabe H, Obama K, Sakai Y. Aortoenteric fistula at the site of esophagojejunostomy after laparoscopic total gastrectomy: Report of a case. *Surg Today.* 2014;44:2162-6. <http://dx.doi.org/10.1007/s00595-014-0834-3>.
 6. Reed CC, Grimm IS. Aortoenteric fistula complicating lumen-apposing metal stent placement for a benign anastomotic stricture. *Gastrointest Endosc.* 2020;92:779-80. <http://dx.doi.org/10.1016/j.gie.2020.04.007>.
 7. Patel RH, Everett BT, Akselrod D, Frasca JD, Gordon SR. Fatal aortoenteric fistula complicating placement of a 20-mm lumen-apposing metal stent for refractory esophagojejunal anastomotic stricture. *ACG Case Rep J.* 2021;8:e00548. <http://dx.doi.org/10.14309/crj.0000000000000548>.
 8. Ahn M, Shin BS, Park MH. Aortoenteric fistula secondary to placement of an esophageal stent: Emergent treatment with cyanoacrylate and endovascular stent graft. *Ann Vasc Surg.* 2010;24. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2009.12.009>. 555.e1-555.e5.
 9. Zhan Y, Xu Z. Massive hemorrhage from an aortoenteric fistula caused by esophageal stent implantation: A case report and literature review. *Medicine (Baltimore).* 2019;98:e18303. <http://dx.doi.org/10.1097/md.00000000000018303>.
 10. Guerrero I, Cuenca JA, Cardenas YR, Nates JL. Hemorrhagic shock secondary to aortoenteric fistula as a complication of esophageal cancer. *Cureus.* 2020;12:e7146. <http://dx.doi.org/10.7759/cureus.7146>.
- Lucía Rigueiro López^a, Joseba Castro Vázquez^b, Carlos Loureiro González^b, Saioa Leturio Fernández^b e Ismael Díez del Val^b
- ^aServicio de Cirugía General y Aparato Digestivo, Complejo Hospitalario Universitario de Ourense, Ourense, España
^bSección de Cirugía Esofagológica, Hospital Universitario Basurto, Bilbao, Vizcaya, España
- * Autor para correspondencia.
 Correo electrónico: lucia.rigueiro.lopez@gmail.com
 (L. Rigueiro López).
- <https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2021.10.002>
 0009-739X/
 © 2021 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Hamartoma multiquístico de vías biliares

Multicystic biliary hamartoma



El hamartoma multiquístico de vías biliares se trata de una enfermedad quística rara del hígado, del que solo se han publicado 8 casos en todo el mundo¹ hasta el año 2012. Suele cursar de forma asintomática y, en la mayoría de las series publicadas, se diagnostica de manera incidental o como resultado de estudios en autopsias².

Presentamos el caso de mujer de 45 años, sin antecedentes personales relevantes, con clínica de dolor abdominal epigástrico de meses de evolución, sin otros síntomas asociados. Se inicia estudio mediante ecografía abdominal, completándose con realización de resonancia magnética nuclear (RM), objetivándose una lesión hepática quística polilobulada, con septos en su interior, localizada entre segmentos VII-VIII, de un tamaño aproximado de 6,5 × 6 × 6,5 cm. Las loculaciones periféricas muestran contenido líquido, mientras que la loculación central muestra contenido hemorrágico heterogéneo. Asimismo, se realiza una angio-TC (fig. 1), con hallazgos compatibles con neoplasia quística biliar, y una PET-TC, sin observarse captación de la LOE. Los resultados de laboratorio no mostraron alteraciones y los valores de GEA y Ca 19.9 fueron normales.

Se decide realizar una intervención quirúrgica programada mediante laparotomía subcostal derecha, evidenciándose LOE hepática en segmentos VII y VIII con aparente infiltración de vena suprahepática derecha, sin líquido libre ni otras lesiones hepáticas ni peritoneales. Se realiza una hepatectomía derecha reglada con resección de pastilla diafragmática de aproximadamente 5 × 5 cm debido a infiltración por la tumoración. Se tomó muestra del líquido intraquístico, resultando estéril y con hallazgos citológicos de extensa necrosis tumoral y escasas células atípicas sospechosas de adenocarcinoma.

El análisis anatomopatológico final concluye como pieza de hepatectomía derecha con múltiples quistes revestidos de epitelio biliar, sin atipia, con presencia de contenido hemorrágico, trombosis y recanalización parcial en el de mayor tamaño, sin identificar estroma de aspecto ovárico, todo ello indicativo de hamartoma biliar multiquístico (fig. 2). No se identifican otras anomalías en el resto del parénquima hepático.

La paciente presentó evolución favorable y fue dada de alta a domicilio al quinto día postoperatorio, sin complicaciones.

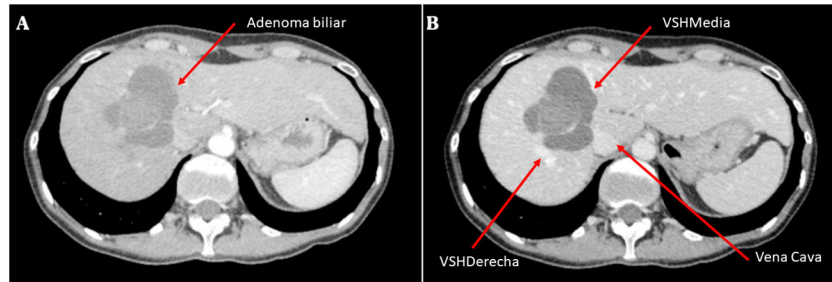


Figura 1 – Angiografía por tomografía computarizada (angio-TC), en la que se observa lesión hepática quística polilobulada, septada, localizada entre segmentos VII-VIII, de un tamaño aproximado de 6,5 × 6 × 6,5 cm. A) Fase arterial. Flecha: adenoma biliar. B) Fase portal. Flechas: vena suprahepática (VSH) derecha, VSH media, vena cava.

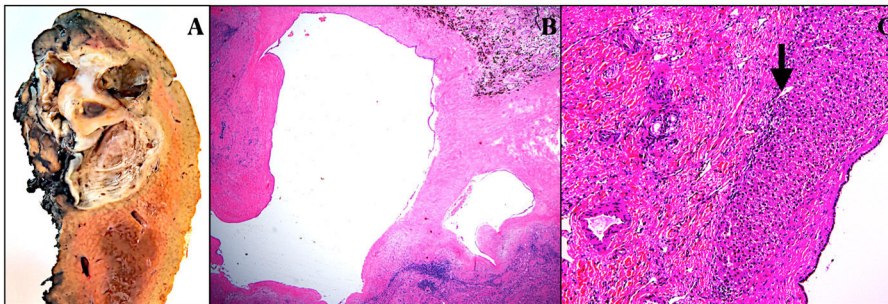


Figura 2 – A) Pieza de hepatectomía derecha con identificación de lesión de aspecto multiquistico con cavidades entre 0,3-4 cm de diámetro con abundante contenido hemático en su interior, que se encuentra inmediatamente proximal a la VSHD. B) Múltiples quistes revestidos de epitelio biliar cilíndrico o cuboideo sin atipia, con áreas de hemorragia en la periferia. Tinción HE. Magnificación 10×. C) Quistes revestidos de epitelio biliar cuboideo sin atipia y tejido hepático interpuesto (flecha). No se observa estroma de tipo ovárico en la lámina propia de ninguno de los quistes. Tinción HE. Magnificación 10×.

El hamartoma biliar multiquistico se describió por primera vez en 2006¹ como una lesión infrecuente, de etiología desconocida², caracterizado por ductos biliares irregulares y ramificados de aspecto malformativo.

Está considerado una malformación hepática benigna que se origina como resultado de un trastorno en las células de los conductos biliares desencadenado por un factor disruptivo o isquémico durante la remodelación de la lámina hepaticoductal³, que se trata de una estructura embrionaria que genera el desarrollo de los conductos distales².

Como se ha mencionado anteriormente, suelen ser asintomáticas, aunque a veces pueden asociar episodios de dolor en el hipocondrio derecho, así como distensión y sensación de masa abdominal².

No suele asociar alteraciones analíticas² y radiológicamente presenta gran similitud con lesiones malignas, como las metástasis hepáticas⁴, por lo que únicamente por pruebas de imagen es difícil realizar un diagnóstico diferencial adecuado. La colangio-RM probablemente sea la prueba de imagen más importante a la hora de establecer el diagnóstico diferencial³.

Entre sus características radiológicas destacan la apariencia de panal de abejas y la presencia de parénquima hepático normal entremezclado dentro de la lesión nodular, general-

mente en la porción periférica de la lesión⁵. Puede diferenciarse del cistoadenoma biliar por su forma, ya que el hamartoma multiquistico tiene una apariencia similar a un panal y los quistes son relativamente uniformes de tamaño, aunque pueden variar si se produce hemorragia, mientras que esto no ocurre en el cistoadenoma o el cistoadenocarcinoma biliar⁵.

El diagnóstico definitivo se establece por biopsia, la cual deberá tomarse en cuña o de manera escisional², ya que la biopsia por punción-aspiración con aguja fina no suele ser diagnóstica y deja más dudas⁶.

Macroscópicamente se objetivan nodulaciones superficiales, subcapsulares, de 0,1 a 0,5 cm de diámetro, sin predilección lobar comprobada, aunque existen casos que sugieren que podría existir una mayor frecuencia del lóbulo derecho⁷.

Es una lesión que suele estar ubicada alrededor de la cápsula hepática, cerca de la fisura del ligamento falciforme, sobresaliendo del hígado. Normalmente está compuesto de estructuras ductales, glándulas periductales y tejido conectivo fibroso, que contienen material biliar en dichas estructuras⁸.

Su tratamiento es conservador, aunque suele ser intervenido por dudas diagnósticas, comunicándose casos de colangiocarcinoma de manera casi anecdótica².

Autoría

Victoria Carmona: redacción del artículo; revisión crítica y aprobación de la revisión final.

Iago Justo: adquisición y recogida de datos; revisión crítica y aprobación de la revisión final.

Yolanda Rodríguez-Gil: adquisición y recogida de datos.

Alberto Marcacuzco: revisión crítica y selección de imágenes.

Carmelo Loinaz: aprobación de la revisión final.

Carlos Jiménez: revisión crítica y aprobación de la revisión final.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

1. Song JS, Noh SJ, Cho BH, Moon WS. Multicystic biliary hamartoma of the liver. *Korean J Pathol.* 2013;47:275-8. <http://dx.doi.org/10.4132/KoreanJPathol.2013.47.3.275>.
2. Durán Vega HC, Luna Martínez J, González Guzmán R, Azamar Gracia F, Barra García R, Ruiz Cruz A, et al. Hamartoma de vías biliares: reporte de un caso y revisión de la literatura. *Rev Gastroenterol Mex.* 2000;65:124-8.
3. Shi QS, Xing LX, Jin LF, Wang H, Lv XH, Du LF. Imaging findings of bile duct hamartomas: A case report and literature review. *Int J Clin Exp Med.* 2015;8:13145-53.
4. Principe A, Lugaresi ML, Lords RC, d'Errico A, Polito E, Gallö MC, et al. Bile duct hamartomas: Diagnostic problems and treatment. *Hepatogastroenterology.* 1997;44:994-7.

5. Ryu Y, Matsui O, Zen Y, Ueda K, Abo H, Nakanuma Y, et al. Multicystic biliary hamartoma: Imaging findings in four cases. *Abdom Imaging.* 2010;35:543-7. <http://dx.doi.org/10.1007/s00261-009-9566-z>.
6. Lev-Toaff AS, Bach AM, Wechsler RJ, Hilpert PL, Gatalica Z, Rubin R. The radiologic and pathologic spectrum of biliary hamartomas. *AJR Am J Roentgenol.* 1995;165:309-13. <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.165.2.7618546>.
7. Wei SC, Huang GT, Chen CH, Sheu JC, Tsang YM, Hsu HC, et al. Bile duct hamartomas: a report of two cases. *J Clin Gastroenterol.* 1997;25:608-11. <http://dx.doi.org/10.1097/0004836-199712000-00012>.
8. Tominaga T, Abo T, Kinoshita N, Murakami T, Sato Y, Nakanuma Y, et al. A variant of multicystic biliary hamartoma presenting as an intrahepatic cystic neoplasm. *Clin J Gastroenterol.* 2015;8:162-6. <http://dx.doi.org/10.1007/s12328-015-0574-y>.

Victoria Carmona^a, Iago Justo^a, Yolanda Rodríguez-Gil^b, Alberto Marcacuzco^a, Carmelo Loinaz^a y Carlos Jiménez^a

^aServicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Universitario Doce de Octubre, Madrid, España

^bServicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario Doce de Octubre, Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: victoriacarmona7@gmail.com (V. Carmona).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2021.10.001>
0009-739X/

© 2021 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Resección de paraganglioma carotídeo previa embolización percutánea con Onyx® bajo control radiológico



Resection of carotid paraganglioma after percutaneous embolization with Onyx® under radiological control

Los tumores del cuerpo carotídeo, tumores glómicos o quemodectomas¹, son los paragangliomas más frecuentes de cabeza y cuello. Son neoplasias raras, benignas, cuya presentación clínica más frecuente es una masa asintomática de crecimiento lento, que en ciertos casos provoca síntomas compresivos^{1,2}.

La historia clínica, el examen físico y el diagnóstico radiológico son los pilares fundamentales en el diagnóstico y el tratamiento^{1,3}. La angiografía es fundamental para

estudiar la anatomía vascular, donde cabe destacar el «signo de la lira», típico de tumores de gran tamaño, que pueden distorsionar la bifurcación carotídea, extendiendo las arterias carótida interna (ACI) y arteria carótida externa (ACE)^{1,2}.

El manejo es un desafío técnico debido al tamaño, la ubicación y al estado de hipervascularización. Por lo general, estos tumores reciben su suministro de sangre a través de ramas de la ACE². La escisión quirúrgica temprana se considera la opción de tratamiento curativo primario^{1,2}.