

Mujer de 24 años, sin hábitos tóxicos, con enfermedad del ovario poliquístico en tratamiento con medroxiprogesterona 60 mg/día. Acude a nuestra consulta, asintomática, tras haber presentado, 8 días después del inicio de la medicación, una citólisis hepática (AST 997 U/l y ALT 1.062 U/l). No se habían determinado la GGT ni la fosfatasa alcalina. La exploración física fue normal. Las serologías frente a los virus de la hepatitis A, B y C, virus de Epstein-Barr, virus herpes simple I y II, virus de la inmunodeficiencia humana, citomegalovirus, *Mycoplasma pneumoniae*, *Coxiella burnetii*, toxoplasma y treponema fueron negativas. También fueron negativos los anticuerpos antinucleares, antimitocondriales, antimúsculo liso y anti-LKM. Los valores de ferritina, alfafetoproteína, alfa-1-antitripsina, cobre, ceruloplasmina y TSH resultaron normales. La ecografía abdominal mostró una litiasis biliar, con vías biliares intra/extrahepáticas no dilatadas.

Ante la sospecha de citólisis hepática inducida por el uso de medroxiprogesterona, se suspendió el fármaco, y se constató a las 3 semanas siguientes la normalización de las transaminasas, con persistencia de una mínima elevación de la GGT (56 U/l). El caso se notificó al Centro Regional de Farmacovigilancia de Castilla y León.

Si tenemos en cuenta que las manifestaciones de la hepatotoxicidad son superponibles a las de cualquier otra enfermedad hepática conocida, y que en la práctica no hay marcadores moleculares de toxicidad hepática en la clínica habitual, ni alteraciones histológicas específicas —lo que desaconseja la biopsia hepática sistemática—, resultan explicables las dificultades diagnósticas que entraña esta entidad⁷.

En el presente supuesto se dan varias de las características más significativas desde el punto de vista del diagnóstico: la exposición a un fármaco con potencial hepatotóxico, la secuencia temporal compatible, la exclusión razonable de causas alternativas y la rápida mejoría tras la retirada del fármaco. Aunque la reexposición a dicho fármaco podría confirmar el diagnóstico, dicha práctica no se sostiene desde el punto de vista ético, salvo circunstancias excepcionales⁸.

En el caso expuesto, y de acuerdo con la escala diagnóstica de CIOMS/RUCAM⁹, la relación de causalidad es probable (7 puntos).

Para concluir, debemos insistir en que hoy día se considera que determinadas características genéticas podrían ser responsables, en mayor o menor medida, de algunas de las reacciones idiosincrásicas de hepatotoxicidad. Por ello, nos reiteramos en que, para hacer viable cualquier estudio en

este sentido —un ejemplo de los cuales es el proyecto europeo Eudragene—, resulta imprescindible la notificación de dichas reacciones a los correspondientes centros de farmacovigilancia.

Bibliografía

1. Andrade RJ, Lucena MI. Hepatotoxicidad: apuntes en el nuevo milenio. *Clin Gastroenterol Hepatol*. 2007;7:4–6.
2. Kaplowitz N. Idiosyncratic drug hepatotoxicity. *Nat Reviews Drug Discov*. 2005;4:489–99.
3. Dienstag JL, Isselbacher KJ. Hepatitis inducida por agentes tóxicos y medicamentos. En: Harrison, Kasper DL, Fauci AS, Longo DL, Braunwald E, Hauser SL, et al, editores. *Principios de medicina interna*. 16.ª ed. México: McGraw-Hill; 2006. p. 2024–31.
4. Biour M, Poupon R, Gragé JD, Chazouilleres O. Hépatotoxicité des médicaments. 13^e mise à jour du fichier bibliographique des atteintes hépatiques et des médicaments responsables. *Gastroenterol Clin Biol*. 2000;24:1052–91.
5. Riippa P, Kauppila A, Sundström H, Vihko R. Hepatic impairment during simultaneous administration of medroxyprogesterone acetate and tamoxifen in the treatment of endometrial and ovarian carcinoma. *Anticancer Res*. 1984;4:109–12.
6. Dydrogesterone-induced hepatitis and autoimmune hemolytic anemia. *Turk J Gastroenterol*. 2004;15:49–52.
7. Andrade RJ, Lucena MI. Toxicidad por medicamentos: detección y tratamiento. *Gastroenterol Hepatol*. 2005;28(Supl 1): 1–11.
8. Andrade RJ, Camargo R, Lucena MI, González-Grande R. Causality assessment in drug-induced hepatotoxicity. *Expert Opin Drug Saf*. 2004;3:329–44.
9. Danan G, Bénichou C. Causality assessment of adverse reactions to drugs. A novel method based on the conclusions of international consensus meeting: application to drug-induced liver injuries. *J Clin Epidemiol*. 1993;46:1323–30.

Silvia Franco Hidalgo^{a,*}, José María Prieto de Paula^a y Inés Salado Valdivieso^b

^a*Servicio de Medicina Interna, Complejo Hospitalario de Palencia, Palencia, España*

^b*Centro Regional de Farmacovigilancia, Instituto de Farmacoepidemiología, Universidad de Valladolid, Valladolid, España*

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: silvi26pras@hotmail.com (S. Franco Hidalgo)

10.1016/j.gastrohep.2008.06.001

Dolor abdominal crónico secundario a un linfangioma quístico mesentérico

Chronic abdominal pain due to a mesenteric cystic lymphangioma

Sr. Director:

El linfangioma es una malformación congénita benigna del sistema linfático. El tratamiento de elección es la

cirugía. La principal complicación es la recidiva, aunque es infrecuente tras la extirpación con márgenes quirúrgicos de seguridad.

Presentamos el caso clínico de una mujer de 29 años de edad, que presentaba dolor abdominal de un mes de evolución. Entre sus antecedentes personales presentaba alergia a pirazolonas y hepatitis en la infancia. En la exploración física se palpaba una masa no adherida a planos profundos en el mesogastrio. Análiticamente, mostraba 7.140 leucocitos/ml (neutrófilos 58%) y hemoglobina de

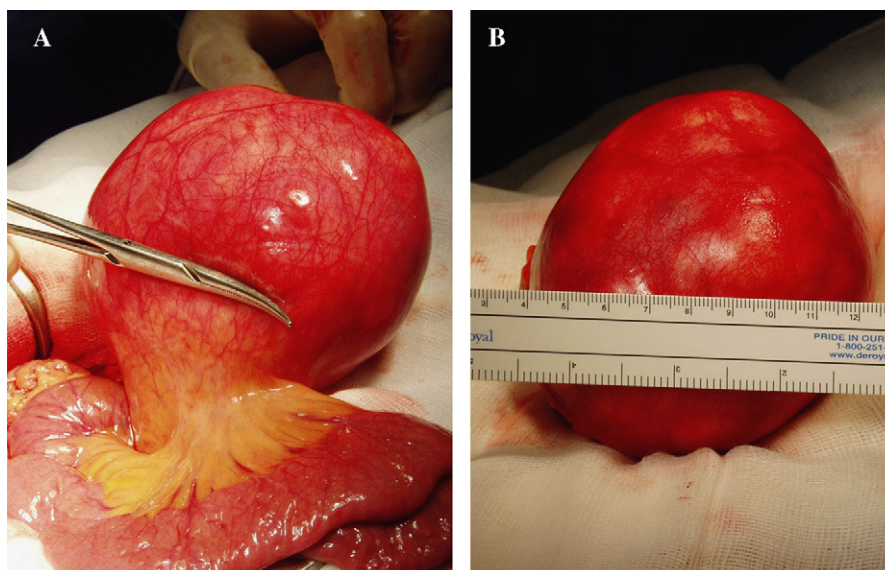


Figura 1 A) Linfangioma quístico originado en el mesenterio. B) Pieza de resección quirúrgica.

14,0g/ml (hematocrito 40,6%); el resto de parámetros analíticos estaban dentro de la normalidad. En la ecografía abdominal se visualizaba una imagen anecoica con tabicaciones internas, sin vascularización, situada en el hipocondrio derecho, que se desplazaba con el movimiento, sin unión íntima a estructuras internas. Se realizó una tomografía computarizada (TC), en la que se ponía de manifiesto una lesión quística peritoneal en la región hipogástrica. Tras la exéresis quirúrgica, la tumoración pesaba 512 g y medía $13 \times 8 \times 8$ cm (fig. 1A y B). A la apertura mostraba un contenido quístico de aspecto lechoso. Microscópicamente, la tumoración estaba constituida por grandes canales vasculares linfáticos revestidos de endotelio sin atipia. Con técnicas de inmunohistoquímica se observó la diferenciación del músculo liso con positividad para desmina, calponina y caldesmón, y negatividad para HMB-45 y S100, a pesar de lo cual fue diagnosticado anatópatológicamente como linfangioma quístico de mesenterio.

El linfangioma es una malformación congénita benigna formada por la dilatación de los vasos del sistema linfático. La incidencia se ha cifrado en 1 de cada 100.000 nacimientos, con predominio del sexo femenino¹. La localización es generalmente cervical, axilar o mediastínica, e inusual la localización intraabdominal², que representa el 5–20% de los casos¹.

Aunque su etiología no está clara, se acepta su origen congénito. Otras posibles causas son el traumatismo abdominal, la neoplasia, la degeneración de ganglios linfáticos y la obstrucción linfática³. Se han descrito tres categorías: capilar, cavernoso y quístico. Los dos últimos se han localizando de forma intraabdominal, y el subtipo capilar de forma subcutánea⁴.

Clínicamente, puede ser asintomática, aunque puede presentarse como masa abdominal, pseudoascitis, abdomen agudo, distensión abdominal, episodios de suboclusión y dolor abdominal crónico^{1–5}.

El diagnóstico está basado en la ecografía, que muestra una lesión circunscrita, anecoica y septada en las lesiones

multiloculadas¹. Tanto la TC como la resonancia magnética proporcionan información acerca del tamaño, la extensión y la relación con estructuras vecinas⁵. El diagnóstico diferencial, en el caso de linfangiomas intraabdominales, se realiza con otras enfermedades malignas retroperitoneales, como tumores quísticos pancreáticos, metástasis ganglionares retroperitoneales y sarcomas retroperitoneales, y con enfermedades benignas, como lipomas, hematomas, linfocitos o abscesos^{4,5}.

La cirugía es el tratamiento de elección en pacientes con clínica secundaria al proceso neoplásico^{1–5}. Como alternativa terapéutica a la resección quirúrgica, se ha descrito el tratamiento mediante la aplicación de agentes esclerosantes intralesionales, como el picibanil (OK-432), lo que provoca una reacción inflamatoria y una esclerosis secundaria. Esta medida se ha aplicado, de forma mayoritaria, en la cabeza y el cuello en la infancia y la adolescencia, con tasas de curación de hasta el 87%.

La principal complicación es la recidiva, aunque es infrecuente siempre y cuando se extirpe la lesión con márgenes libres de enfermedad².

Bibliografía

1. De Lagausie P, Bonnard A, Berrebi D, Lepretre O, Statopoulos L, Delarue A, et al. Abdominal lymphangiomas in children: interest of the laparoscopic approach. *Surg Endosc*. 2007;21:1153–7.
2. Pereira Gallardo S, Gómez Torres FJ, Torres Olivera FJ. Cystic lymphangioma of the adrenal glands. Case report. *Arch Esp Urol*. 2007;60:187–9.
3. Mohite PN, Bhatnagar AM, Parikh SN. A huge omental lymphangioma with extension into labia majorae: a case report. *BMC Surg*. 2006;6:18.
4. Erdem S, Iskender C, Avsar AF, Altundag OB, Ustunyurt E. Benign cystic lymphangioma presenting as a pelvic mass. *J Obstet Gynaecol Res*. 2006;32:628–30.
5. Arzo M, Ibarz LL, Areal J, González C, Ruiz J, Saladié JM. Cystic lymphangioma. Our experience. *Actas Urol Esp*. 2006;30:723–7.

Pablo Menéndez^{a,*}, David Padilla^a, Pedro Villarejo^a, Daniel Gambi^a, Teófilo Cubo^a, José María Menéndez^b y Jesús Martín^a

^aServicio de Cirugía General y de Aparato Digestivo, Hospital General de Ciudad Real, Ciudad Real, España

^bServicio de Cirugía General y de Aparato Digestivo A, Hospital Universitario 12 de Octubre, Madrid, España

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico:pablomensan@hotmail.com (P. Menéndez)

10.1016/j.gastrohep.2008.06.003

Doble píloro: hallazgo inusual de una enfermedad común

Double pylorus: an unusual finding in a common disease

Sr. Director:

El doble píloro consiste en la creación de un canal accesorio entre el estómago distal y el bulbo duodenal, de forma que el antro gástrico y el bulbo se conectan por dos aperturas separadas entre sí por un canal o puente¹. La fístula generalmente parte de la curvatura menor gástrica y conecta con la pared superior del bulbo duodenal. En la mayoría de los casos se trata de una complicación adquirida, pero se han reportado casos de origen congénito. Gran parte de los pacientes responde al tratamiento médico, pero hasta un 20% de ellos requiere cirugía por síntomas refractarios u otras complicaciones².

Presentamos el caso de un paciente que acude a urgencias por presentar heces de características melénicas y vómitos en posos de café. Es hipertenso, diabético, tiene una enfermedad pulmonar obstructiva crónica (EPOC) y presenta un hábito etílico.

A su ingreso mantiene la estabilidad hemodinámica, con presión arterial de 180/79 mmHg y frecuencia cardíaca de 84 lat/min.

En la analítica destacan cifras de hemoglobina de 7,4 g/dl y urea de 144 mg/dl, con valores de creatinina dentro de la normalidad.

Se realiza una endoscopia digestiva alta precoz, en la que se aprecia una úlcera prepilórica, profunda, de más de 1 cm, con fondo fibrinado, que es benigna tras el análisis de las biopsias endoscópicas, sin encontrar más hallazgos.

Seis días después, tras un tratamiento intensivo con inhibidores de la bomba de protones en perfusión, se repite de nuevo la endoscopia digestiva alta, en la que se aprecian en la región prepilórica dos orificios separados por un puente de mucosa normal, que conecta con la luz del bulbo duodenal, como se comprueba con la pinza de biopsia (fig. 1).

La prevalencia del píloro doble es del 0,06–0,4%, y es más frecuente en varones, en proporción 2:1. Se ha reportado una incidencia de alrededor del 0,08% en un análisis de 2.500 endoscopias digestivas altas¹. En otra serie reciente sobre 102.958 gastroscopias se encontraron 20 casos². El diagnóstico se realiza por endoscopia, que usualmente muestra un orificio accesorio, de diámetro variable, con ausencia de peristaltismo. El orificio yuxtapilórico hacia la curvatura menor es la localización más frecuente que se reporta en un estudio realizado en Taiwán, publicado en *Gastrointestinal Endoscopy*, con la mayor serie revisada.

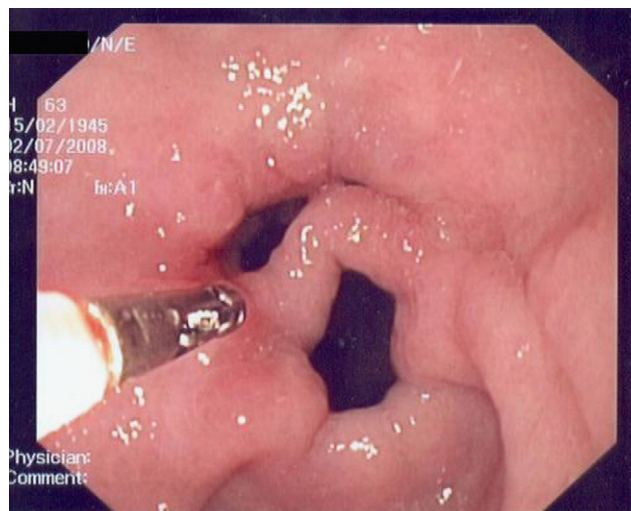


Figura 1 Imagen endoscópica del antro gástrico. Se aprecia un píloro amplio con un tabique de características mucosas normales. Los dos orificios desembocan en el bulbo duodenal.

Aun en las series más largas, el doble píloro es un diagnóstico endoscópico raro y, en la mayoría de los casos, posterior a una enfermedad ulceropéptica. Es difícil de diagnosticar radiológicamente, y en la endoscopia el antro debe estar suficientemente distendido por aire para visualizar la fístula, que en ocasiones se enmascara por la presencia de pliegues gástricos^{3–6}. Desde al antro, la visualización de la pinza de biopsia, que ha pasado a través de la fístula y se observa entrando en el bulbo duodenal, se ha descrito como una técnica útil para su diagnóstico⁷.

En cuanto a su etiología, Rokitansky fue el primero en sugerir que esta comunicación era creada por 2 úlceras separadas, una en el estómago y otra en el duodeno, que profundizaban una hacia la otra. Sin embargo, la mayoría de los estudios no lo han podido comprobar; por el contrario, han demostrado que la penetración de una úlcera, tanto en el antro gástrico como en el bulbo duodenal, conduce a la formación de adherencias en la pared de estos órganos. Subsecuentemente, la penetración a lo largo de la capa muscular provoca un trayecto fistuloso^{7,8}. Muy frecuentemente, el canal pilórico accesorio permanece siempre, pero en algunos pacientes éste se cierra o conecta con el píloro verdadero para formar un único canal de nuevo. El doble píloro congénito es extremadamente raro.

El manejo del doble píloro es habitualmente conservador, con tratamiento antiulceroso. Sin embargo, la cicatrización de la úlcera en estos pacientes es rara². Se ha señalado que algunos pacientes presentan un alivio de los síntomas de su enfermedad ulcerosa tras formarse la fístula; en cambio,