

capsule to visualize lesions like ulcers that go unnoticed by the radiology.

In conclusion, gastrointestinal bleeding due to a donor artery pseudo-aneurysm with arterio-enteric fistula is a severe complication in kidney-pancreas transplanted recipients, and although Doppler ultrasound, CTA, MRA angiography and arteriography are the main diagnostic studies, capsule endoscopy could play a role in selected cases if radiology studies are normal.

Bibliografía

- White SA, Shaw JA, Sutherland DE. Pancreas transplantation. *Lancet*. 2009;373:1808-17.
- Hindryckx P, Botelberge T, De Vos M, De Looze D. Clinical impact of capsule endoscopy on further strategy and long-term clinical outcome in patients with obscure bleeding. *Gastrointest Endosc*. 2008;68:98-104.
- Saperas E, Dot J, Videla S, Alvarez-Castells A, Perez-Lafuente M, Armengol JR, et al. Capsule endoscopy versus computed tomographic or standard angiography for the diagnosis of obscure gastrointestinal bleeding. *Am J Gastroenterol*. 2007;102:731-7.
- Barone GW, Webb JW, Hudec WA. The enteric drained pancreas transplant: another potential source of gastrointestinal bleeding. *Am J Gastroenterol*. 1998;93:1369-71.
- Snider JF, Hunter DW, Kuni CC, Castaneda-Zuniga WR, Letourneau JG. Pancreatic transplantation: radiologic evaluation of vascular complication. *Radiology*. 1991;178:749-53.
- Khan TF, Ciancio G, Burke GW 3rd, Sfakianakis GN, Miller J. Pseudoaneurysm of the superior mesenteric artery with an arteriovenous fistula after simultaneous kidney-pancreas transplantation. *Clin Transplant*. 1999;13:277-9.
- Mc Beth BD, Stern SA. Lower gastrointestinal hemorrhage from an arterioenteric fistula in a pancreatorenal transplant patient. *Ann Emerg Med*. 2003;42:587-91.
- Dalla Valle R, Capocasale E, Mazzone MP, Busi N, Piazza P, Benozzi L, et al. Embolization of a ruptured pseudoaneurysm with massive hemorrhage following pancreas transplantation: a case report. *Transplant Proc*. 2005;37:2275-7.
- Higgins PD, Umar RK, Parker JR, DiMaggio MJ. Massive lower gastrointestinal bleeding after rejection of pancreatic transplants. *Nat Clin Pract Gastroenterol Hepatol*. 2005;2:240-4.
- González-Suárez B, Guarner C, Escudero JR, Viver E, Palmer J, Balanzó J. Wireless capsule video endoscopy: a new diagnostic method for aortoduodenal fissure. *Endoscopy*. 2002;34:938.
- Larrey Ruiz L, Luján Sanchis M, Peño Muñoz L, Barber Hueso C, Cors Ferrando R, Durá Ayet AB, et al. Pseudoaneurysm associated with complicated pancreatic pseudocysts. *Rev Española de Enfermedades Digestivas*. 2016;108:583-5.

Hugo I. Uchima^a, Isis K. Araujo^a, Joana Ferrer^b, Marta Burrell^c, Alejandro Sotomayor^c, Ángeles García-Criado^c, Faust Feu^a, M.J. Ricart^d, Josep Llach^a, Begoña González-Suárez^{a,*}

^a *Unitat d'Endoscòpia Digestiva, Servei de Gastroenterologia, ICMDiM, Hospital Clínic de Barcelona, Catalunya, Spain*

^b *Servei de Cirurgia General i Digestiva, ICMDiM, Hospital Clínic de Barcelona, Catalunya, Spain*

^c *Centre de Diagnòstic per Imatge, Hospital Clínic de Barcelona, Catalunya, Spain*

^d *Servei de Nefrologia i trasplantament renal, IDIBAPS, CIBERehd, Hospital Clínic de Barcelona, Catalunya, Spain*

Corresponding author.

E-mail address: bgonzals@clinic.cat (B. González-Suárez).

<https://doi.org/10.1016/j.gastrohep.2016.12.006>
0210-5705/

© 2017 Elsevier España, S.L.U., AEEH y AEG. All rights reserved.

Seudocirrosis en cáncer de mama metastásico



Pseudocirrhosis in metastatic breast cancer

La seudocirrosis es un término radiológico que hace referencia a una alteración de la morfología hepática que asemeja una cirrosis en ausencia de la histología típica en el estudio anatomopatológico¹. Esta entidad ha sido descrita mayormente en casos de cáncer de mama metastásico con o sin uso de quimioterapia sistémica (QT). Sin embargo se han visto casos similares en otras neoplasias como cáncer de páncreas, esófago y tiroides²⁻⁵. Su prevalencia y el mecanismo exacto por el que se produce son aún desconocidos. Según los estudios publicados hasta el momento se ha propuesto que el cambio morfológico puede ser secundario tanto al efecto de la infiltración metastásica del tejido sano como a la toxicidad hepática de la QT⁶.

Presentamos el caso de una mujer de 39 años que ingresó en el servicio de digestivo en agosto 2015, por alteración del perfil hepático y hallazgo en TAC abdominal de afectación difusa del parénquima hepático.

Como antecedentes personales destacaba una mastectomía con linfadenectomía derecha por carcinoma ductal infiltrante pT1b(m) pN1a (RE-, RP, HER2+++ p53 [80%], Ki-67 [30%], BRCA-) en junio de 2012. Recibió tratamiento con QT adyuvante con 4 ciclos de ciclofosfamida + doxorubicina y, posteriormente, terapia combinada con docetaxel + trastuzumab durante 3 meses hasta marzo de 2013. Continuó con trastuzumab en monoterapia hasta completar un año, finalizando la quimioterapia en enero de 2014 y realizándose mastectomía profiláctica izquierda en junio de 2014. La paciente se mantuvo asintomática y con analíticas normales durante 26 meses de seguimiento, con una TAC toraco-abdominal en mayo de 2014 que fue rigurosamente normal.

Al ingreso la paciente presentaba un cuadro de 3 meses de astenia e ictericia sin ninguna otra sintomatología asociada, negando toma de tóxicos o fármacos. La exploración física fue normal y analíticamente destacaba una hipertransaminasemia con hiperbilirrubinemia a expensas de indirecta y serologías para virus EVB, CMV, VHB, VHA y VHC negativas. La TAC (fig. 1) realizada un mes previo al ingreso describía una afectación difusa del parénquima



Figura 1 TAC abdomino-pélvica con contraste 30/7/2015: afectación difusa del parénquima hepático de predominio en LHI con un patrón de realce heterogéneo en mosaico con venas suprahepáticas permeables. Además, presenta áreas de retracción capsular y alteración del contorno hepático.

hepático de predominio en lóbulo hepático izquierdo, con patrón de realce heterogéneo sin LOE hepáticas ni signos de diseminación metastásica, sugestivo de enfermedad venooclusiva hepática. Durante el ingreso, presentó empeoramiento de la función hepática (Child-Pugh B7 y MELD de 16) y una trombocitopenia progresiva, presentando asimismo títulos bajos de anticuerpos antinucleares (ANA), siendo el resto del estudio autoinmune negativo.

La RM hepática mostró un hígado regenerativo con extensas áreas de fibrosis y signos de hipertensión portal (HTP), sin evidencia de lesiones sugestivas de malignidad. Se descartó afectación de venas suprahepáticas mediante eco-Doppler y se realizó una gastroscopia donde se objetivaron VVEE grado III/IV y una GHTP moderada. Finalmente, dada la coagulopatía se optó por una fina biopsia hepática guiada con ECO, obteniendo 2 cilindros hepáticos delgados fragmentados, pero con patrón arquitectural conservado. A nivel microscópico se observaron áreas de fibrosis mal delimitadas con nidos de células tumorales e imágenes de permeación vascular a nivel sinusoidal y de algunas venas portales, explicándose el mecanismo de HTP (presinusoidal y sinusoidal). Sin embargo, no existían datos de síndrome veno-oclusivo ya que las venas centrales no se encontraban afectadas y tampoco se encontraron nódulos de hiperplasia nodular regenerativa (HNR). La inmunohistoquímica mostró positividad nuclear para GATA-3, hecho característico, aunque no específico del tejido mamario. Además, las células infiltrativas presentaban HER2+++ (fig. 2), y tinción negativa para RE y RP (un comportamiento similar al tumor de mama primario). Por lo tanto, los hallazgos confirmaron la presencia de metástasis hepática de carcinoma de mama después de más de 2 años del diagnóstico, a pesar de la realización de mastectomía, 2 protocolos de QT adyuvante y un año de tratamiento biológico. En un tiempo de evolución de 2 meses, la paciente desarrolló empeoramiento clínico, analítico y radiológico, produciéndose finalmente su fallecimiento.

La seudocirrosis sobre hígado metastásico, puede relacionarse con la retracción de la cápsula de Glisson sobre las metástasis hepáticas por efecto de la QT, simulando una

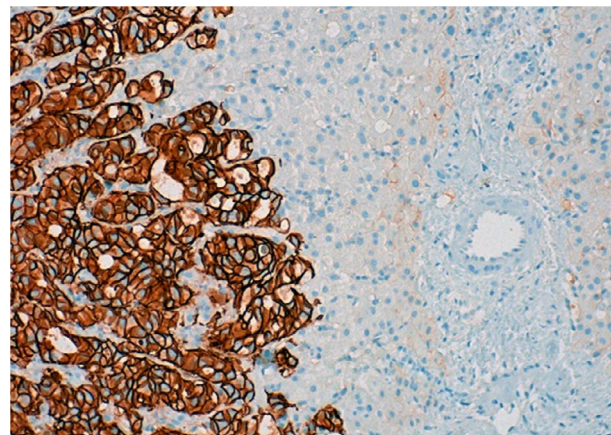


Figura 2 Microscopio óptico: positividad del citoplasma de las células atípicas para Her2+++.

cirrosis macronodular⁷. Es independiente de la presencia y/o el tamaño de las metástasis hepáticas y es secundario a agentes QT. La toxicidad produce isquemia del parénquima con la consecuente reconstitución secundaria en forma de HNR en ausencia de los característicos puentes de fibrosis presentes en la cirrosis. Fisiopatológicamente, la HNR puede ser causante de HTP por compresión de las sinusoides y venas centrales, de manera similar al síndrome veno-oclusivo. Hay publicados escasos artículos en la literatura en los que la seudocirrosis aparece en ausencia de tratamiento QT. Para explicar este fenómeno se ha propuesto como mecanismo la propia reacción desmoplásica en forma de fibrosis extensa secundaria a la infiltración de células atípicas metastásicas⁶.

El paciente puede estar asintomático y únicamente detectarse una alteración analítica. Cuando progresa la enfermedad, pueden observarse los signos típicos de una cirrosis hepática descompensada. Los hallazgos radiológicos son los característicos de una cirrosis, con lobulación de los bordes hepáticos, retracción capsular multifocal, pérdida de volumen del lóbulo hepático derecho, hipertrofia del lóbulo caudado y lóbulo hepático izquierdo asociado o no a signos de HTP. Puede resultar de ayuda la comparación con estudios previos, donde se suele ver un hígado anatómicamente normal. Las alteraciones morfológicas se desarrollan habitualmente en un plazo muy corto, de entre semanas y pocos meses tras el comienzo de la QT, progresando más rápidamente que la cirrosis. La única manera de diferenciar entre una cirrosis verdadera y la seudocirrosis es el estudio histológico. Sin embargo, es un método invasivo que no siempre se puede realizar. Por ello, será fundamental una buena historia clínica para relacionar los hallazgos radiológicos con los antecedentes personales.

Bibliografía

1. Lee SL, Chang ED, Na SJ, Kim JS, An HJ, Ko YH, et al. Pseudocirrhosis of breast cancer metastases to the liver treated by chemotherapy. *Cancer Res Treat.* 2014;46:98-103.
2. Kang SP, Taddei T, McLennan B, Lacy J. Pseudocirrhosis in a pancreatic cancer patient with liver metastases: A case report of complete resolution of pseudocirrhosis with an early

- recognition and management. *World J Gastroenterol.* 2008;14:1622–4.
3. Kobashigawa C, Nakamoto M, Hokama A, Hirata T, Kinjo F, Fujita J. Pseudocirrhosis in metastatic esophageal cancer. *South Med J.* 2010;103:488–9.
 4. Harry BL, Smith ML, Burton JR Jr, Dasari A, Eckhardt SG, Diamond JR. Medullary thyroid cancer and pseudocirrhosis: Case report and literature review. *Curr Oncol.* 2012;19:e36–41.
 5. Liu CH, Chao TY. Education and imaging. Hepatobiliary and pancreatic: Pseudocirrhosis after chemotherapy. *J Gastroenterol Hepatol.* 2011;26:788.
 6. Sass DA, Clark K, Grzybicki D, Rabinovitz M, Shaw-Stiffel TA. Diffuse desmoplastic metastatic breast cancer simulating cirrhosis with severe portal hypertension: A case of pseudocirrhosis. *Dig Dis Sci.* 2007;52:749–52.
 7. Young ST, Paulson EK, Washington K, Gulliver DJ, Vredenburg JJ, Baker ME. CT of the liver in patients with metastatic breast carcinoma treated by chemotherapy: Findings simulating cirrhosis. *AJR Am J Roentgenol.* 1994;163:1385–8.

Alba Hidalgo-Blanco^{a,*},
Maddi Aguirresarobe-Gil de San Vicente^a, Santi Aresti^a,
Eduardo de Miguel^b
y Jose Luis Cabriada-Nuno^a

^a Servicio de Aparato Digestivo, Hospital de Galdakao-Usansolo, Usansolo, Bizkaia, España
^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital de Galdakao-Usansolo, Usansolo, Bizkaia, España

* Autor para correspondencia.

Correos electrónicos: albahidalgoblanco@gmail.com,
alba.hidalgoblanco@osakidetza.eus (A. Hidalgo-Blanco).

<https://doi.org/10.1016/j.gastrohep.2016.12.005>
0210-5705/

© 2017 Elsevier España, S.L.U., AEEH y AEG. Todos los derechos reservados.

Hyperamylasaemia and gastrointestinal bleeding as the first manifestation of jejunal ectopic pancreas



Hiperamilasemia y hemorragia digestiva como primera manifestación de páncreas ectópico yeyunal

The presence of ectopic pancreatic tissue is a relatively rare entity. Just a few retrospective case series are available in the literature. It is usually an incidental finding without clinical consequences. Between those patients who develop symptoms, bleeding has been described as a rare complication of this condition. We describe a case report of gastrointestinal bleeding and hyperamylasemia secondary to jejunal pancreatic tissue successfully managed with surgery.

A 31 year-old woman was admitted to our hospital because of gastrointestinal bleeding. She had no relevant past personal or family medical history. She was only taking folic acid because she was planning to become pregnant. She had been also taking nonsteroidal anti-inflammatory drugs during the last month. In the previous week before admission she had observed daily melanic stools. She also complained of mild to moderate colicky abdominal pain. Physical examination was unremarkable. Blood analysis revealed iron deficiency anemia (hemoglobin 7.3 g/dL, ferritin <3 ng/ml, transferrin saturation 3.1%) and mild hyperamylasemia (pancreatic amylase 128 U/L, normal range 13–53). An urgent upper endoscopy showed no signs of gastrointestinal bleeding. A computed tomography was performed and showed a mass in proximal jejunum of 22 mm. This lesion showed a morphology and tissue enhancement similar to those in the pancreas, so an ectopic pancreatic tissue was suspected. Capsule endoscopy revealed a submucosal mass located in the jejunum, without active bleeding. This finding was further confirmed by magnetic resonance enterography (Fig. 1). A laparoscopic segmental resection was performed during

the admission. The final histological diagnosis revealed a jejunal ectopic pancreatic tissue of 27 mm with superficial ulceration (Fig. 2).

An ectopic pancreas is defined as pancreatic tissues lacking vascular or anatomic communication with the normal body of the pancreas, yet possessing histological features of pancreatic acinar formation, duct development and islets of Langerhans with independent blood supply and ductal system.^{1–3} It is supposed to arise due to the persistence of a duodenal evagination involved in the normal development of the pancreas. Another hypothesis suggests the presence of pancreatic metaplasia of the endodermal tissue in the gastric mucosa.⁴ It has been described in multiple locations along the gastrointestinal tract, being the stomach

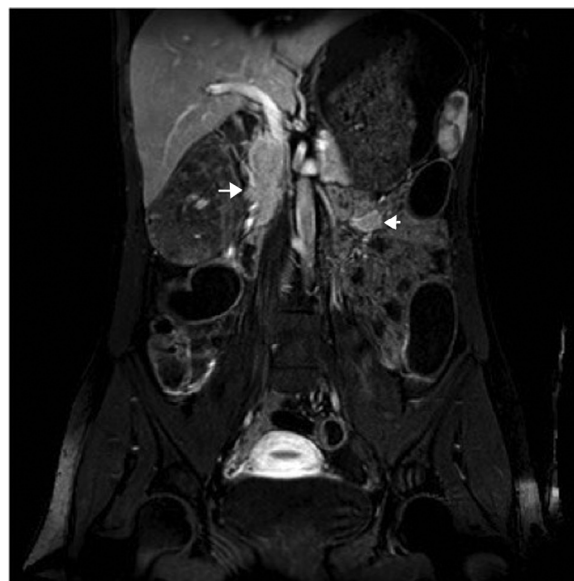


Figure 1 Magnetic resonance enterography (T1) showing a mass in the jejunum (arrowhead) suggestive of ectopic pancreatic tissue. Normal pancreatic tissue is also present (arrow).