

Hemorragia hepática espontánea como causa inusual de abdomen agudo hemorrágico

Spontaneous hepatic hemorrhage as unusual cause of acute intra-abdominal hemorrhage

Agustín Insausti , Francisco Orozco , Juan Cruz Iaquinandi , Gustavo Stork 

Sector Cirugía
Hepatobiliopancreática
(HPB), Servicio de
Cirugía General.
Hospital Municipal de
Agudos Dr. Leónidas
Lucero de Bahía Blanca.
Buenos Aires. Argentina.

Los autores declaran no
tener conflictos
de interés.
*Conflicts of interest
None declared.*

Correspondencia
Correspondence:
Agustín Insausti
E-mail: doctorinsausti@gmail.com

RESUMEN

La hemorragia hepática espontánea (HHE) es una afección rara que resulta de una lesión en el parénquima hepático producida sin una causa externa. Presentamos el caso de una mujer de 74 años que, durante una internación por reagudización de su enfermedad pulmonar obstructiva crónica (EPOC), desarrolla episodio de hemorragia hepática espontánea que evoluciona a shock hemorrágico. Se realiza cirugía con resección atípica de carcinoma hepatocelular (HCC) con hemorragia activa en segmento III hepático. La paciente responde al tratamiento inicial, pero a los 16 días posoperatorios fallece en Unidad de Terapia Intensiva (UTI) debido a una afección respiratoria.

■ **Palabras clave:** hemorragia hepática espontánea, carcinoma hepatocelular

ABSTRACT

Spontaneous hepatic hemorrhage (SHH) is a rare condition resulting from a breach in the hepatic parenchyma that occurs without an external cause. We report the case of a 74-year-old woman who, while being hospitalized due to exacerbation of chronic obstructive pulmonary disease (COPD), presented an episode of SHH with hemorrhagic shock. She underwent atypical resection of a hepatocellular carcinoma (HCC) with active bleeding in liver segment III. The patient had a favorable response to the initial treatment but died in the intensive care unit (ICU) on postoperative day 16 due to a respiratory tract complication.

■ **Keywords:** spontaneous hepatic hemorrhage, carcinoma, hepatocellular

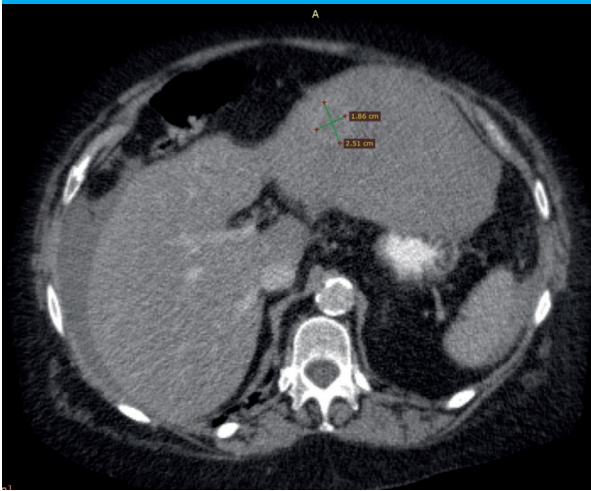
Recibido | Received 14-09-21 | *ID ORCID: Agustín Insausti, 0000-0002-0828-6272; Francisco Orozco, 0000-0001-8471-0330; Juan Cruz Iaquinandi, 0000-0002-7424-3406; Gustavo Stork, 0000-0001-7116-5206.*
Aceptado | Accepted 19-11-21

Existen diferentes causas que pueden derivar en un abdomen agudo hemorrágico (AAH), algunas con marcada frecuencia como el traumatismo abdominal, las lesiones vasculares como rotura de aneurismas o los AAH posoperatorios. También se describen en la literatura las causas ginecológicas como embarazo ectópico o el síndrome HELLP. Pero aún existen causas más inusuales de AAH y una de ellas es la hemorragia hepática espontánea (HHE). La HHE es una afección infrecuente que resulta de una lesión en el parénquima hepático producida sin una causa externa. Se trata de una emergencia quirúrgica aguda, ya que da lugar a una hemorragia intraabdominal que, si no se trata, evoluciona al shock hemorrágico y la muerte. En cuanto al pronóstico de la HEE, se informan tasas de mortalidad cero en pacientes con tumores benignos (adenoma, hiperplasia focal nodular y hemangiomas), así como poliarteritis, mientras que, de los pacientes con carcinoma hepatocelular (HCC), el 40% fallece dentro de los 12 meses de tratamiento, y de ellos un 20% lo

hace durante la primera semana de la presentación.

Se presenta el caso de una mujer de 74 años, con antecedente de enfermedad pulmonar obstructiva crónica (EPOC), hipertensión arterial, diabetes tipo II y obesidad, que consulta por disnea y tos productiva. Es internada en sala de clínica médica por reagudización del EPOC. Evoluciona con dolor súbito y distensión abdominal, hipotensión arterial y taquicardia. Se realiza tomografía computarizada de abdomen (Fig. 1) donde se observa líquido libre en cavidad e imagen hipodensa que abarca gran parte del lóbulo hepático izquierdo, con una imagen de 20 mm en segmento III redondeada e hiperdensa. Se realiza paracentesis diagnóstica, positiva para hemoperitoneo. Se decide conducta quirúrgica y se halla –a través de laparotomía exploradora– hemoperitoneo generalizado con gran coágulo adherido al lóbulo hepático izquierdo. Al removerlo, se descubre una lesión indurada sangrante en segmento III (Fig. 2A). Se realiza una resección atípica por el equipo de cirugía hepatobiliopancreática (HPB), lo que permite controlar

■ FIGURA 1



Tomografía computarizada (TC) de abdomen. Se observa líquido libre en cavidad e imagen redondeada de 2,51 × 1,86 cm en lóbulo hepático izquierdo (líneas verdes), hipodensa rodeada de halo hiperdenso.

el sangrado, y ofrecer un eventual tratamiento curativo en un solo tiempo. La anatomía patológica informó hepatocarcinoma bien diferenciado (Fig. 2 B y C).

La paciente responde al tratamiento inicial, pero a los 16 días posoperatorios fallece en Unidad de Terapia Intensiva (UTI) debido a una afección respiratoria.

El carcinoma hepatocelular (HCC) o hepatocarcinoma representa el 15% de todas las hemorragias hepáticas espontáneas (HHE). Sin embargo, solo el 10% de todos los HCC se presenta como HHE¹. Como causas benignas de HHE, el adenoma, el hemangioma y la hiperplasia nodular focal son los más comunes. Las causas malignas incluyen el hepatocarcinoma, el angiosarcoma y los tumores metastásicos². Muchos de estos pacientes tienen cirrosis o fibrosis subyacente avanzada y se manejan preferentemente de forma no operatoria, con tratamiento conservador (reanimación activa) o embolización. En los casos avanzados se prefiere la atención paliativa¹. El caso aquí presentado se trató de un hígado no cirrótico (HNC), lo cual hace aún

más raro el caso clínico ya que, según la bibliografía, el 90% de los HCC se desarrolla sobre hígado cirrótico o con hepatopatía crónica, lo que constituye el principal factor de riesgo⁷.

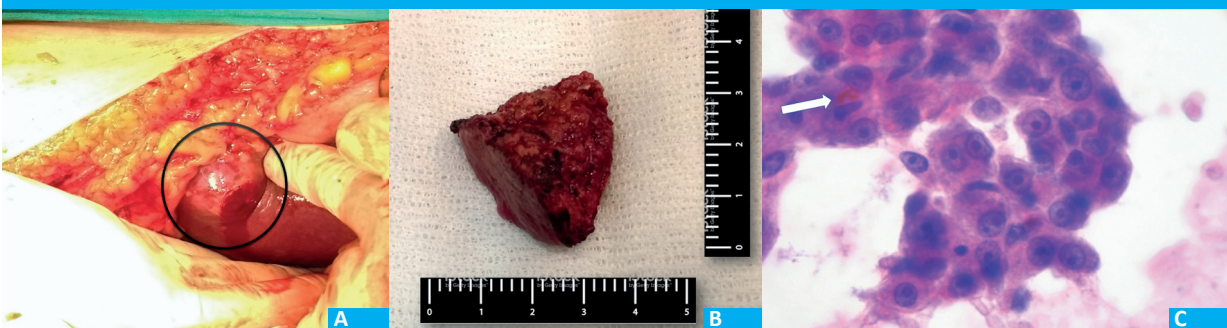
En los pacientes que continúan sangrando o re-inciendiando, la embolización es eficaz para la obtención de hemostasia en casi el 80%, pero no factible en hasta un 20% de los casos debido a problemas técnicos, como la trombosis de la vena porta principal³.

El tratamiento agudo con quimioembolización transarterial (TACE) (embolización y quimioterapia al mismo tiempo) posee tasas similares de hemostasia en pacientes con HCC¹. Se cree que hasta un 20% de los pacientes sometidos a embolización necesitarán intervención quirúrgica para lograr hemostasia debido a hemorragia persistente o recurrente⁴.

Es importante dejar en claro el concepto de que, según la literatura analizada, una resección hepática no debería realizarse de forma aguda con el único objetivo de obtener hemostasia. Los pacientes candidatos para resección local o segmentaria deben ser cuidadosamente seleccionados: se prefieren tumores periféricos, en pacientes bien compensados y con enfermedad hepática subyacente mínima. Por otro lado, hoy en día se sabe que las resecciones en hígados no cirróticos por lo general poseen un alto índice de seguridad, con morbimortalidad perioperatoria baja y con bajo índice de insuficiencia hepática, ya que el remanente hepático es sano y la función hepática se mantiene, aunque en el 20% de las HHE no es posible esta selección porque se presentan inestables hemodinámicamente, lo que obliga a realizar una laparotomía de urgencia diagnosticando el origen del sangrado en el intraoperatorio¹.

Por lo tanto, ante este tipo de pacientes, en los que se debe actuar rápidamente, las maniobras básicas que suelen recomendarse son el *packing* hepático asociado a la ligadura de arteria hepática homolateral. Estas dos maniobras llegan a detener el sangrado en dos tercios de los pacientes⁵. Según Zhu y cols., la embolización aguda transarterial (TAE) con espuma hemostática ("gel foam") en lugar de *coils* sigue siendo una buena

■ FIGURA 2



A: Hallazgo durante laparotomía: lesión hepática indurada con sangrado activo en segmento III (círculo negro). B: Pieza quirúrgica de 3 × 3,5 cm de hepatectomía atípica de segmento III hepático. C: Imagen microscópica 40x. Hepatocarcinoma bien diferenciado. Se observa patrón trabecular-sinusoidal y la presencia de cuerpos de Mallory (flecha blanca).

opción en pacientes con cierta estabilidad hemodinámica, es mínimamente invasiva y mostró buenos resultados⁶. En cambio, la TACE de forma aguda suele ser una opción en pocos centros de alta complejidad que cuenten con esta tecnología³.

En el caso presentado se optó por una resección atípica debido a varios factores, comenzando por la estabilidad hemodinámica de la paciente durante la cirugía. Además, la lesión era pequeña y se ubicaba en la periferia. Por último, se contaba con un equipo de cirugía hepatobiliar disponible en el momento de la urgencia.

Sobre la base de esta presentación se podría considerar que, en algunos casos seleccionados, –dependiendo de si se cuenta con los recursos necesarios– una resección pequeña, económica y de baja complejidad se puede llegar a realizar en HCC que se presenten como HHE. Esto no solo resolvería el sangrado sino ofrecería al paciente la oportunidad de un tratamiento eventualmente curativo en un solo tiempo, siempre y cuando no significara un aumento considerable del tiempo operatorio. De todas maneras, se requieren más estudios o serie de casos al respecto para poder afirmar dicha consideración.

ENGLISH VERSION

There are different causes that can lead to acute intra-abdominal hemorrhage (IAH); abdominal trauma, vascular lesions as ruptured aneurysms or postoperative bleeding are the most common ones. Other gynecological causes as ectopic pregnancy or HELLP (hemolysis, elevated liver enzymes, low platelets) syndrome are also described in the literature. Spontaneous hepatic hemorrhage (SHH) is an unusual cause of acute IAH. This rare condition results from a breach in the hepatic parenchyma that occurs without an external cause. It is an acute surgical emergency as it results in intra-abdominal bleeding that, if untreated, will progress to hemorrhagic shock and death. The prognosis of SHH is favorable in patients with benign tumors (adenoma, focal nodular hyperplasia and hemangioma) and polyarteritis, with mortality rates of 0%. In patients with hepatocellular carcinoma (HCC), 40% die within 12 months of treatment, and in 20% of them mortality occurs within the first week of presentation.

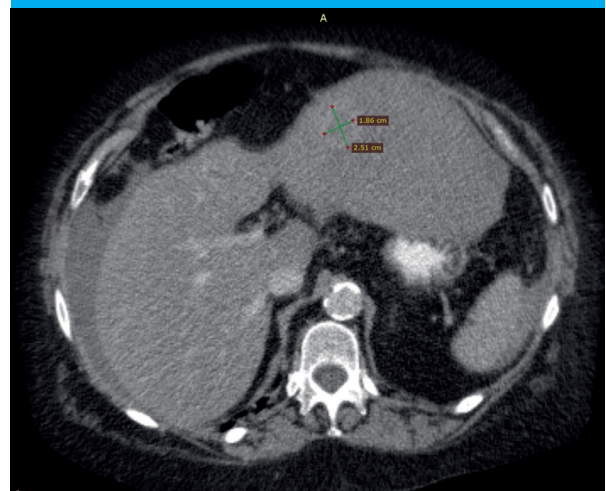
A 74-year-old woman with a history of chronic obstructive pulmonary disease (COPD), hypertension, type 2 diabetes and obesity sought medical advice for dyspnea and productive cough. She was admitted to the internal medicine ward due to COPD exacerbation. During hospitalization the patient evolved with sudden pain, abdominal bloating, hypotension and tachycardia. A computed tomography (CT) scan of the abdomen (Fig. 1) showed free peritoneal fluid, a hypodense lesion covering almost the entire left liver lobe, and a 20-mm rounded and hyperdense lesion in segment III. The diagnostic paracentesis was positive for hemoperitoneum. An exploratory laparotomy was decided. On surgery, an extensive hemoperitoneum was found, with a large thrombus attached to the left liver lobe. After removing the thrombus, an indurated bleeding lesion was observed in segment III (Fig. 2A). The hepatobiliary and pancreatic surgical team performed an atypical resection to control bleeding and offer a possible single-stage curative treatment.

The pathology examination reported the presence of a well-differentiated hepatocellular carcinoma (Fig. 2 B and C)).

The patient had a favorable response to the initial treatment but died in the intensive care unit (ICU) on postoperative day 16 due to a respiratory tract complication.

Hepatocellular carcinoma (HCC) accounts for 15% of all SHHs. However, only 10% of HCC present as SHH¹. The most common benign causes of SHH are adenomas, hemangiomas, and focal nodular hyperplasia. Malignant causes include hepatocellular carcinoma, angiosarcoma and metastatic tumors². Many of these patients have advanced underlying cirrhosis or fibrosis and are preferentially managed non-operatively either with conservative management (active resuscitation) or embolization. In advanced cases palliative care is preferred¹. The case here described was a non-cirrhotic liver (NCL), which is even rarer since, according to the literature, 90% of HCCs

FIGURE 1



Computed tomography (CT) scan of the abdomen showing free peritoneal fluid, a 2.51 × 1.86-cm rounded, hypodense lesion with surrounding hyperdense halo in the left liver lobe (green lines).

develop in patients with cirrhotic liver or with chronic liver disease, which constitutes the main risk factor⁷.

In patients with persistent or recurrent bleeding, embolization is effective to achieve hemostasis in almost 80%, but is not feasible in up to 20% of cases due to technical issues, such as thrombosis of the main portal vein³.

In the acute setting, transarterial chemoembolization (TACE), a combination of embolization with delivery of chemotherapy, has similar rates of hemostasis in patients with HCC¹. Up to 20% of patients undergoing embolization will require surgical intervention to achieve hemostasis owing to persistent or recurrent bleeding⁴.

It should be emphasized that, according to the literature reviewed, a liver resection should not be performed in the acute setting for the sole purpose of achieving hemostasis. Patients who are candidates for local or segmental resection should be carefully selected: those patients well-compensated, with peripheral tumors and with minimal underlying liver disease are the best candidates. On the other hand, it is now known that resections in non-cirrhotic livers can be safely performed, with low perioperative morbidity and mortality and low incidence of postoperative liver failure, since the liver remnant is healthy and liver function is maintained. However, this selection is not possible in 20% of SHH because patients are hemodynamically unstable, require emergency

laparotomy, and the diagnosis of the source of bleeding is made intraoperatively¹.

Therefore, the basic maneuvers that are usually recommended for this type of patients who require rapid management are hepatic packing associated with ipsilateral hepatic artery ligation. Both maneuvers successfully stop bleeding in two-thirds of patients⁵. According to Zhu et al., emergency transcatheter arterial embolization (TAE) with Gelfoam instead of coils remains a good option in patients with certain hemodynamic stability, is minimally invasive and has showed good results⁶. On the other hand, emergency TACE is usually an option available in few high complexity centers³.

In the case reported, an atypical resection was decided due to many factors, particularly the hemodynamic stability of the patient during surgery. In addition, the lesion was small and peripheral. Finally, a team of hepatobiliary and pancreatic surgeons was available during the emergency.

Based on this presentation, a small, inexpensive, low-complexity resection may be considered in selected cases of HCC presenting as SHH, depending on the availability of resources. This would not only stop the bleeding but would offer the patient the opportunity of a possible curative treatment in a single procedure as long as it does increase the operative time. Further studies or case series are needed to confirm this consideration.

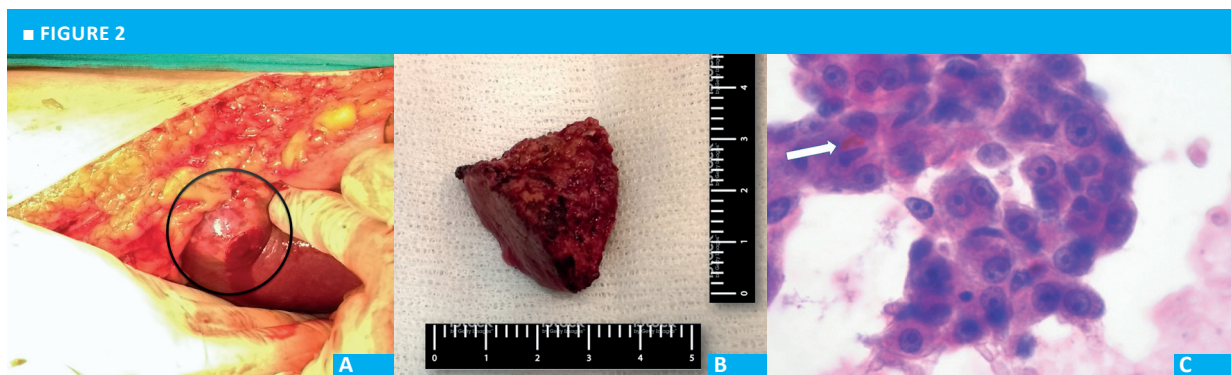


FIGURE 2
A: Indurated liver lesion with active bleeding in segment III (black circle) found during laparotomy. B: Surgical specimen of atypical liver resection of liver segment III measuring 3 × 3.5 cm. C: Microscopic image 40x. Well differentiated hepatocellular carcinoma with trabecular pattern with sinusoids and Mallory bodies (white arrow).

Referencias bibliográficas /References

- Srinivasa S, Lee W G, Aldameh A, Koea J B. Spontaneous hepatic haemorrhage: a review of pathogenesis, aetiology and treatment. *HPB (Oxford)*. [Internet]. 2015 Oct; 17(10):872-80.
- Battula N, Tsapralis D, Takhar A, Coldham C, Mayer D, Isaac J, et al. Aetio-pathogenesis and the management of spontaneous liver bleeding in the West: a 16 years single-center experience. *HPB (Oxford)*. [Internet]. 2012 Jun; 14(6):382-9.
- Liu CL, Fan ST, Lo CM, Tso WK, Poon RT, Lam CM, et al. Management of spontaneous rupture of hepatocellular carcinoma: single centre experience. *J Clin Oncol*. 2001;19:3725-32.
- Fan WZ, Zhang YQ, Yao W, Wang Y, Tan GS, Huang YH, Yang JY, Li JP. Is Emergency Transcatheter Hepatic Arterial Embolization Suitable for Spontaneously Ruptured Hepatocellular Carcinoma in Child-Pugh C Cirrhosis? *J Vasc Interv Radiol*. 2018;29(3):404-12. e3. doi: 10.1016/j.jvir.2017.09.022. Epub 2017 Dec 14.
- Kirikoshi H, Saito S, Yoneda M, Fujita K, Mawatari H, Uchiyama T, et al. Outcomes and factors influencing survival in cirrhotic cases with spontaneous rupture of hepatocellular carcinoma: a multicenter study. *BMC Gastroenterol*. 2009; 9:1-9.
- Zhu LX, Wang GS, Fan ST. Spontaneous rupture of hepatocellular carcinoma. *Br J Surg*. 1996;83:602-7.