

## Hidatidosis esplénica única

### *Isolated splenic hydatid disease*

José R. Varela , Enrique Petracchi , Héctor Posada , Magalí Muthular , Julián Azar , Carlos Canullán

Servicio de Cirugía  
General  
Hospital Cosme  
Argerich.  
Ciudad de Buenos Aires.  
Argentina

Los autores declaran no  
tener conflictos  
de interés.

*Conflicts of interest*  
*None declared.*

Correspondencia  
*Correspondence:*  
José R. Varela  
E-mail:  
jose.varela932@gmail.com

#### RESUMEN

La hidatidosis es una parasitosis endémica en la Argentina. Los órganos más afectados son hígado y pulmón, pero la afectación esplénica única es infrecuente. El objetivo del trabajo es presentar 2 casos de hidatidosis esplénica única. Su diagnóstico presuntivo se realizó mediante el antecedente epidemiológico y los estudios por imágenes. Las serologías resultaron negativas en ambos casos. El tratamiento fue quirúrgico: se realizó esplenectomía laparoscópica total. Esta patología debe sospecharse en zonas endémicas ante la aparición de quistes esplénicos a pesar de presentar serologías negativas. La esplenectomía total evita la recidiva local y cavidades residuales; se prefiere el abordaje laparoscópico al disminuir la estadía hospitalaria y las complicaciones de la pared abdominal.

■ **Palabras clave:** quiste hidatídico, esplenectomía, laparoscopía.

#### ABSTRACT

Hydatid disease is an endemic parasitosis in Argentina. The liver and lungs are the organs more commonly affected, but isolated splenic involvement is rare. The aim of this study is to report two cases of isolated splenic hydatid disease. The diagnosis was suspected by epidemiology and imaging tests. The serologic tests were negative in both cases. Surgical management was decided and both patients underwent laparoscopic total splenectomy. This disease should be suspected in endemic areas in the presence of splenic cysts despite negative serologic tests. Total splenectomy prevents local recurrence and complications associated with the residual cavity. The laparoscopic approach is preferred as it results in a shorter length of hospital stay and fewer abdominal wall complications.

■ **Keywords:** hydatid cyst, splenectomy, laparoscopy.

Recibido | Received 06-03-23 ID ORCID: José R. Varela, 0000-0003-3860-235X; Enrique Petracchi, 0000-0002-2575-4656; Héctor Posada, 0000-0002-0398-7870; Magalí Muthular, 0000-0001-6934-095X; Julián Azar, 0009-0006-6931-4384; Carlos Canullán, 0000-0002-5755-0367.  
Aceptado | Accepted 30-05-23

La hidatidosis es una parasitosis endémica en la Argentina y el ser humano adquiere la infección luego de la ingesta de alimentos contaminados con huevos del parásito. El desarrollo en el organismo corresponde a la fase larvaria de *Echinococcus granulosus*.

Los órganos más afectados son hígado (50-80%) y pulmón (25%). La afectación esplénica se observa en áreas endémicas y representa el 50-80% de todos los quistes esplénicos. Los quistes hidatídicos extrahepáticos primarios son infrecuentes y, dentro de ellos, la hidatidosis esplénica única representa el 2 al 3,5%<sup>1</sup>.

El objetivo de este trabajo es presentar dos casos de hidatidosis esplénica única.

#### Caso 1

Mujer de 60 años con índice de masa corporal (IMC) de 35 kg/m<sup>2</sup>, residente en zona rural, consulta por dolor abdominal en hipocondrio izquierdo asociado a vómitos y pérdida de peso (11 kg en 1 mes). La

ecografía abdominal muestra una imagen redondeada hipoecogénica de 15 cm (Gharbi tipo V). La tomografía de abdomen con contraste intravenoso muestra una imagen quística calcificada, en contacto con diafragma y estómago (Fig. 1A). Se realizaron estudios serológicos ELISA y Western Blot que resultaron negativos para hidatidosis. Se decide conducta quirúrgica y se realiza esplenectomía laparoscópica. Evoluciona favorablemente y se externa el 3.<sup>er</sup> día posoperatorio. El estudio anatómopatológico informa lesión de 15×13×11 cm, peso 895 gramos con hallazgos compatibles con quiste hidatídico (Fig. 1B).

#### Caso 2

Mujer de 41 años, con IMC de 37 kg/m<sup>2</sup>, residente en región rural, consulta por dolor en hipocondrio izquierdo. Se realiza ecografía que informa lesión quística esplénica de 20×16 cm (Gharbi 1). Se realizan tomografía de abdomen (Fig. 1C) y estudios serológicos

(ELISA y Western Blot), que resultan negativos para hidatidosis. Se decide conducta quirúrgica mediante esplenectomía laparoscópica. Evoluciona favorablemente y se la extrena al 4.º día posoperatorio. El estudio anatómopatológico informó lesión de 20×16×10 cm, con peso de 2410 gramos y hallazgos morfológicos e histopatológicos compatibles con quiste hidatídico, con presencia de microorganismos viables (Fig. 1D).

Las dos pacientes recibieron el mismo tratamiento en sus distintas etapas. La preparación perioratoria constó de vacunación contra microorganismos encapsulados y tratamiento con albendazol 15 mg/kg/día durante 30 días previos y 90 días posteriores a la intervención. En ambas pacientes se realizó una esplenectomía total laparoscópica por vía anterior en decúbito lateral derecho; el control de los vasos cortos se efectuó con bisturí armónico y el hilio esplénico con Hem-o-lok™. Se preparó una solución escolicida ante la posibilidad de rotura, y se logró completar la esplenectomía total sin rotura. La pieza se extrajo a través de una incisión de Pfannenstiel con protección del campo quirúrgico con solución salina hipertónica al 20%. Ambas pacientes completaron el tratamiento antiparasitario posoperatorio durante 3 meses. No se observaron complicaciones ni recurrencia de enfermedad con un seguimiento de 20 y 36 semanas en cada caso.

La afectación esplénica de la hidatidosis sin lesiones hepáticas o pulmonares es excepcional y su presentación clínica es inespecífica. Sin embargo, en zonas endémicas, debe considerarse como un diagnóstico diferencial ante la aparición de cualquier quiste esplénico (Tabla 1).

El primer caso de quiste hidatídico esplénico fue informado por Berlot en 1790 a partir de una autopsia, mientras que Sabadini, en 1991, presentó el primer informe acumulativo con una revisión de la literatura de 300 casos<sup>1</sup>.

El diagnóstico se basa en la epidemiología y los estudios por imágenes, puesto que la clínica es inespecífica y los estudios serológicos presentan una elevada tasa de falsos negativos. En nuestras pacientes, el diagnóstico se realizó mediante el antecedente epidemiológico, y estudios por imágenes, y se confirmó por anatomía patológica.

La ecografía, debido a su bajo costo y elevada sensibilidad y especificidad (100% y 97%, respectivamente),

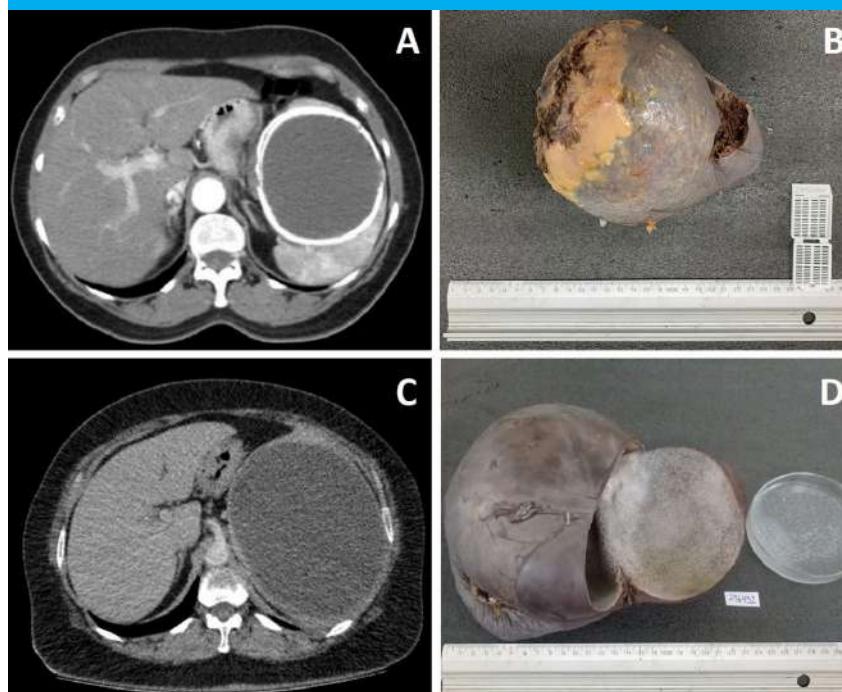
■ TABLA 1

Clasificación de quistes esplénicos no parasitarios

Congénitos	Epiteliales. Epidermoides. Mesoteliales Sin celularidad demostrable
Neoplásico	Neoplasia de origen endotelial Linfangioma Hemangioma Tumores quísticos primarios Tumores metastásicos
Traumáticos	Con claro antecedente traumático Secundarios, sobre todo a hematoma subcapsular
Necróticos	Tras infección con esplenitis: antecedente de endocarditis, fiebre tifoidea, linfadenopatías generalizadas infecciosas, mononucleosis infecciosa, etc.
Degenerativas	Infartos esplénicos quistificados

Tomada de Morgenstern L. Nonparasitic splenic cysts: Pathogenesis, classification, and treatment. J Am Coll Surg. 2002; 194:306-14.

■ FIGURA 1



A y B, C y D: Imagen tomográfica y espécimen patológico de caso 1 y 2, respectivamente

es el estudio de imagen inicial<sup>2</sup>. La especificidad en el diagnóstico de hidatidosis esplénica es, a su vez, 3 veces superior a la serología<sup>2</sup>. Otra utilidad es que permite clasificar los quistes según la escala de Gharbi<sup>3</sup>.

La tomografía agrega datos estructurales del quiste, como su calcificación o signos de complicación (sangrado e infección). Asimismo, permite establecer la relación del quiste con los vasos sanguíneos y con órganos vecinos, pudiendo orientar el diagnóstico diferencial con otras lesiones, como quiste epidermoide, absceso esplénico y neoplasia quística del bazo<sup>2</sup>.

Las serologías resultaron negativas en ambas pacientes. Sin embargo, esto no descarta el diagnóstico, ya que –como describen Mejri y colaboradores<sup>4</sup>– esto puede observarse hasta en un 62,5% cuando la ubicación es esplénica única, aun con microorganismos viables como en nuestro caso 2.

El tratamiento farmacológico se realiza con antiparasitarios (albendazol) en pacientes asintomáticos, como profilaxis prequirúrgica, o en pacientes que tienen contraindicación quirúrgica. El uso prequirúrgico se realiza con una dosis 10-15 mg/kg/día durante 30 días y 90 días posteriores a la intervención<sup>5</sup>. En caso de rotura del quiste con volcado de su contenido en la cavidad, la dosis es de 15 mg/kg/día cada 12 horas<sup>5</sup>.

El tratamiento quirúrgico variará de acuerdo con la edad del paciente, la localización, tamaño y cantidad de quistes, porcentaje de parénquima esplénico residual, comorbilidades y estado general del paciente. Las opciones pueden ser el drenaje percutáneo, el destechamiento con omentoplastia y la esplenectomía conservadora o radical.

El drenaje percutáneo y el destechamiento con omentoplastia cuentan con la ventaja de la mininvasividad, pero exponen a un riesgo de recidiva y potencial formación de abscesos en la cavidad residual. De acuerdo con algunos autores podría además prolongar la estadía hospitalaria<sup>4</sup>.

La esplenectomía parcial y la enucleación de la lesión tienen un elevado riesgo de sangrado<sup>6</sup> y solo estarían indicadas en casos selectos como el de pacientes con comorbilidades mayores, quistes pequeños o en población pediátrica en los que se intente preservar el órgano.

En nuestro trabajo, ambos quistes eran mayores de 15 cm y ocupaban más del 75% del parénquima esplénico, por lo que se eligió la esplenectomía total. Esta intervención evita las cavidades residuales con su posible reinfección, es técnicamente más sencilla, posee menor riesgo de sangrado, y la recidiva es infrecuente.

Algunos autores aconsejan la cirugía convencional para quistes de gran tamaño aduciendo que la movilización y liberación de estructuras vecinas puede ser dificultosa<sup>4</sup>. En nuestra opinión, la laparoscopia es útil ya que, una vez controlado el pedículo esplénico, la esplenectomía suele ser segura. Este abordaje mejora la recuperación posoperatoria, la reincisión laboral temprana y la disminución de complicaciones de la pared abdominal.

El quiste hidatídico esplénico único es infrecuente; sin embargo, debe ser considerado en la evaluación inicial de lesiones quísticas esplénicas, especialmente en áreas endémicas. Su diagnóstico presuntivo se realiza mediante epidemiología y estudios por imágenes. La serología negativa no debe descartar la sospecha, debido a la elevada incidencia de falsos negativos. La confirmación se obtiene por resultado anatomo-patológico. La esplenectomía total laparoscópica debería ser el abordaje de elección, incluso ante bazo de gran tamaño porque logra la eliminación del parásito, con bajo riesgo de morbimortalidad y recurrencia.

#### Agradecimientos

Agradecemos la colaboración de Leandro M. Danze, del Servicio de Anatomía Patológica

#### ■ ENGLISH VERSION

Hydatid disease is an endemic parasitosis in Argentina. Humans are infected through ingestion of parasite eggs in contaminated food. In the organism, the disease is caused by the larval stage of *Echinococcus granulosus* which predominantly develops in the liver (50-80%) and lungs (25%). Splenic involvement is seen in endemic areas and accounts for 50-80% of all splenic cysts. Primary extrahepatic hydatid cysts are rare, and among these, isolated splenic hydatid disease account for 2 to 3.5%<sup>1</sup>.

The aim of this study is to report two cases of isolated splenic hydatid disease.

#### Case 1

A 60-year-old female patient with a body mass index (BMI) of 35 kg/m<sup>2</sup> who lived in a rural area

sought medical advice due to abdominal pain in the left hypochondriac region associated with vomiting and weight loss (11 kg within a month). The abdominal ultrasound showed a 15-mm rounded hypoechoic image (Gharbi type V). The computed tomography (CT) scan of the abdomen with intravenous contrast agent revealed the presence of a calcified cyst in contact with the diaphragm and stomach (Fig. 1A). Serologic tests were performed by ELISA and Western blot technique and the results were negative for hydatid disease. Surgical management was decided, and the patient underwent laparoscopic splenectomy. She evolved with favorable outcome and was discharged on postoperative day 3. The pathological examination reported a 15×13×11 cm mass weighing 895 grams with findings consistent with hydatid cyst (Fig. 1B).

**Case 2**

A 41-year-old female patient with a body mass index (BMI) of 37 kg/m<sup>2</sup> who lived in a rural sought medical advice due to pain in the left hypochondriac region. The ultrasound showed a splenic cyst with a size of 20×16 cm (Gharbi type 1). The patient underwent a CT scan of the abdomen (Fig. 1C) and serologic tests by ELISA and Western blot techniques which were negative for hydatid disease. Surgical management was decided, and the patient underwent laparoscopic splenectomy. She evolved with favorable outcome and was discharged on postoperative day 4. The pathological examination reported a 20×16×10 cm mass weighing 2410 grams with morphologic and histopathologic findings consistent with hydatid cyst with presence of viable microorganisms (Fig. 1D).

Both patients received the same treatment in their different stages. Perioperative treatment consisted of vaccination against encapsulated bacteria and treatment with albendazole at a dose of 15 mg/kg/day for 30 days prior to surgery and 90 days after surgery. Both patients underwent laparoscopic total splenectomy via an anterior approach in the right lateral decubitus position, with hemostatic control of the short vessels with a harmonic scalpel and of the splenic hilum with hemostatic (Hem-o-lok®) clips. A scolicidal solution was prepared in case a cystic rupture occurred, and total splenectomy was performed without rupture. The specimen was extracted through a Pfannestiel incision with protection of the operative field with hypertonic saline at 20%. Both patients completed the postoperative antiparasitic treatment for 3 months.

There were no complications or recurrences after a follow-up period of 20 and 36 weeks in each case.

Spleen involvement in hydatid disease without hepatic or pulmonary cysts is exceptional and nonspecific. However, it should be considered as a differential diagnosis in endemic areas when splenic cysts are present (Table 1).

The first case of splenic hydatid cyst was reported by Berlot in 1790 as an autopsy finding. Sabadini presented the first cumulative report in 1991 with a literature review of 300 cases<sup>1</sup>.

Diagnosis is based on epidemiology and imaging tests because the clinical presentation is

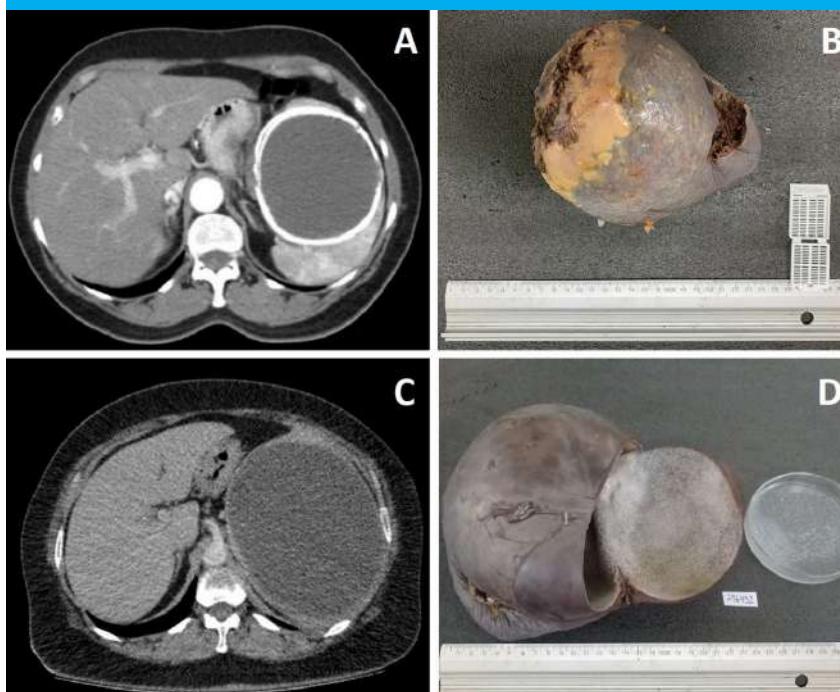
■ TABLE 1

## Classification of non-parasitic splenic cysts

Congenital	Epithelial lining. Epidermoid lining. Mesothelial lining. Lack of demonstrable cellular lining
Neoplastic	Neoplasms of endothelial origin Lymphangioma Hemangioma Cystified primary or metastatic tumors
Traumatic	With documented history of trauma. Secondary to subcapsular hematoma.
Necrotic	After spleen infection: history of endocarditis, typhoid fever, generalized lymphadenopathy due to infection, infectious mononucleosis, etc.
Degenerative	Cystified splenic infarcts

From Morgenstern L. Nonparasitic splenic cysts: Pathogenesis, classification, and treatment. J Am Coll Surg. 2002; 194:306-14.

■ FIGURE 1



A and B, C and D. Computed tomography image and pathology specimen of cases 1 and 2, respectively.

nonspecific and serologic tests have a high false negative rate. In our patients, the diagnosis was made by the epidemiologic history and imaging tests and was confirmed by pathological examination.

Work-up begins with ultrasound because of its low cost and high sensitivity and specificity (100% and 97%, respectively)<sup>2</sup>. The specificity of ultrasound in the diagnosis of splenic hydatid disease is three times higher than that of serology<sup>2</sup>. Another useful feature is the ability to classify cysts according to the Gharbi classification<sup>3</sup>.

Computed tomography provides additional information about the structure of the cyst, such as calcification or signs of complications (bleeding and infection). It also demonstrates the relationship between the cyst and the blood vessels and adjacent organs and can help in differentiating it from other lesions such as epidermoid cysts, splenic abscesses, and cystic neoplasms of the spleen<sup>2</sup>.

The serologic tests were negative in both patients. However, this does not exclude the diagnosis because, as Mejri et al.<sup>4</sup> had described, serology can be negative in up to 62.5% of isolated splenic localizations, even with viable microorganisms as in our case 2.

Drug treatment is performed with antiparasitic drugs (albendazole) in asymptomatic patients, as preoperative prophylaxis, or in patients with contraindications to surgery. Preoperative treatment is given in doses of 10-15 mg/kg/day for 30 days and 90 days postoperatively<sup>5</sup>. In the case of a ruptured cyst with peritoneal spread, the dose is 15 mg/kg/day every 12 hours<sup>5</sup>.

The surgical treatment plan depends on several factors, including the patient's age and performance status, location, size and number of cysts, percentage of residual splenic parenchyma and comorbidities. Options include percutaneous drainage, unroofing with omentoplasty, and conservative or radical splenectomy.

The advantages of percutaneous drainage and unroofing with omentoplasty are that they are

minimally invasive but expose the patient to the risk of recurrence and possible abscess formation in the residual cavity. Some authors have also indicated that these techniques could result in an increased length of hospital stay<sup>4</sup>.

Partial splenectomy and enucleation are associated with high risk of bleeding<sup>6</sup>. Therefore, these procedures should only be considered in selected cases, such as patients with significant comorbidities, small cysts, or in the pediatric population in whom spleen preservation should be attempted.

In our study, both cysts were larger than 15 cm and occupied more than 75% of the splenic parenchyma. Therefore, total splenectomy was considered the most appropriate option. This procedure avoids complications related to the residual cavity such as reinfection, is technically simpler, has lower risk of bleeding, and recurrence is rare.

Some authors recommend conventional surgery for large cysts due to the potential difficulty in mobilizing and releasing adjacent structures. In our opinion, laparoscopy is useful because once hemostatic control of the splenic pedicle is achieved, splenectomy is usually safe. This approach allows for improved post-operative recovery, earlier return to work and fewer abdominal wall complications.

Isolated splenic hydatid cyst is uncommon but should be considered in the initial work-up of splenic cystic lesions, especially in endemic areas. The diagnosis is suspected by epidemiology and imaging tests. Negative serologic tests should not exclude the diagnosis because of the high rate of false negative results. The diagnosis is confirmed by the pathological examination. Laparoscopic total splenectomy is the recommended approach, even in cases of large spleens, as it offers a low risk of morbidity, mortality and recurrence.

#### Acknowledgments

We appreciate the collaboration of Leandro M. Danze, of the Pathological Anatomy Service

#### Referencias bibliográficas /References

- Prieto M, Marquina T, Mifsut P, Moreno T. Hidatidosis esplénica: 5 casos de esta rara localización. Enferm Infec Micr Cl. 2011;29(8):634-5. <https://doi.org/10.1016/j.eimc.2011.04.003>
- Tévez-Crause L, Daiana-Vaccaro R, De Luca PA, Vásquez-Guillén ME, Calaramo OA, Logioco F. Hidatidosis: Clasificación clínico-imagenológica según Gharbi y la Organización Mundial de la Salud. Rev Argent Radiol. 2022;86(1). <https://doi.org/10.24875/rar.m2200010>
- Gharbi HA, Hassine W, Brauner, M. W., Dupuch, K. Ultrasound examination of the hydatid liver. Radiology. 1981;139(2):459-63. <https://doi.org/10.1148/radiology.139.2.7220891>
- Mejri A, Arfaoui K, Ayadi MF, Aloui B, Yaakoubi J. Primitive isolated hydatid cyst of the spleen: total splenectomy versus spleen saving surgical modalities. BMC Surgery. 2021; 21(1), 46. <https://doi.org/10.1186/s12893-020-01036-8>
- Guía para el equipo de salud N.º 11: Enfermedades Infecciosas-Hidatidosis. (2012). Ministerio de Salud. ISSN 1852-1819 / en línea: ISSN 1852-219X [https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2018-10/0000000797cnt-2012-03-29\\_hidatidosis-guia-medica.pdf](https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2018-10/0000000797cnt-2012-03-29_hidatidosis-guia-medica.pdf)
- Cai H, An Y, Wu D, Chen X, Zhang Y, Zhu F, et al. Laparoscopic partial splenectomy: A preferred method for select patients. J Laparoendosc Adv Surg Tech A. 2016;26(12): 1010-4. <https://doi.org/10.1089/lap.2016.0150>