

Hemosuccus Pancreaticus: Rara Asociación entre Pancreatitis Aguda, Alcoholismo y Lesiones Vasculares en la Circulación Esplácnica *

Angélica Del Valle Pirela Pinto, Francheska Miroslava Rodríguez Guanipa, Fernando Javier Carrera Viñoles, Anaís Dolores Tavárez Valero, Guillermo Antonio Blanco Hernández

Recibido: 03/10/2020

Aceptado: 12/10/2020

Resumen

La pancreatitis aguda o crónica puede resultar en lesiones del conducto pancreático, además, la corrosión por el jugo pancreático puede provocar la ruptura de la pared vascular periférica, lo que conduce a hemosuccus pancreático (HP) definido como el sangrado del conducto pancreático a través de la ampolla de Vater. El sangrado suele ser intermitente, repetitivo y, a menudo, no lo suficientemente grave, como para causar inestabilidad hemodinámica. La mayoría de los pacientes tiene antecedentes de enfermedades pancreáticas originales y cuando esto no se cumple, debe incluirse en el diagnóstico diferencial para alcoholistas crónicos con hemorragia digestiva alta intermitente. Presentamos una forma clínica atípica en un paciente masculino de 55 años de edad, con antecedentes de HTA, alcoholismo y aneurisma de la aorta abdominal, quien consultó por dolor tipo cólico en abdomen superior; náuseas y vómitos; luego se asoció disminución del estado de conciencia, alternando con episodios de agitación psicomotriz y primo convulsión generalizada. Una vez ingresado, sucedieron varios episodios de melena. La tomografía abdominal mostró aumento de tamaño y densidad (unidades hounsfield de 58-61) en cabeza y cuerpo del páncreas, por lo que se realizó una angiografía abdominal con protocolo de páncreas y se evidenció doble lesión aneurismática de la arteria esplénica y la arteria gástrica. Falleció en el postoperatorio.

Palabras clave: Hemosuccus Pancreaticus; Pancreatitis Hemoductal; Wirsungrragia.

Hemosuccus Pancreaticus: an unusual association of acute pancreatitis, alcoholism and vascular abnormalities of the splanchnic circulation

Angélica Del Valle Pirela Pinto, Francheska Miroslava Rodríguez Guanipa, Fernando Javier Carrera Viñoles, Anaís Dolores Tavárez Valero, Guillermo Antonio Blanco Hernández

Abstract

Acute or chronic pancreatitis can result in lesions of the pancreatic duct; in addition, corrosion by the pancreatic juice can cause the rupture of the peripheral vascular wall, which leads to pancreatic hemosuccus defined as bleeding from the pancreatic duct through the Vater ampulla. Bleeding is often intermittent, repetitive, and often not severe enough to cause hemodynamic instability. Most of the cases have a history of strictly pancreatic original diseases, when this is not the case, the PH should be included in the differential diagnosis for chronic alcoholics with intermittent upper gastrointestinal bleeding. We report here an atypical presentation in a 55-year-old male patient with a history of hypertension, alcoholism and an abdominal aortic aneurysm. He consulted for colicky abdominal pain in the upper abdomen, nausea and vomiting; subsequently he presented decreased consciousness, alternating with episodes of psychomotor agitation and generalized seizures. Once hospitalized he had several bouts of melena. The abdominal tomography showed an increase in the size and density (hounsfield units of

* Hospital José María Vargas, Servicio de Medicina Interna, Caracas, Venezuela
E-mail: Guillermo Blanco Hernandez <guillermomducv@gmail.com>

HEMOSUCCUS PANCREATICUS: RARA ASOCIACIÓN ENTRE PANCREATITIS AGUDA, ALCOHOLISMO Y LESIONES VASCULARES EN LA CIRCULACIÓN ESPLÁCNICA

58-61) of the head and body of the pancreas. An abdominal angiography with a pancreas protocol was performed, which evidenced a double aneurismal lesion of the splenic and gastric arteries. The patient died after surgery.

Key words: Hemosuccus Pancreaticus; Hemoductal Pancreatitis; Wirsungrragia.

Introducción

La Hemosuccus Pancreaticus (HP) se define como el sangramiento del conducto pancreático a través de la ampolla de Vater. Desde su descripción inicial por Van Kemmel en 1960 como wirsumgrragia¹, se han descrito diferentes términos para hacer referencia a esta entidad; Sandblom propuso por primera vez el término hemosuccus pancreaticus (HP) en 1970, y Longmire y Rose utilizaron el término pancreatitis hemoductal en 1973.² Generalmente, es causado por una fuente de sangrado en el páncreas, el conducto pancreático o estructuras adyacentes al páncreas. Tanto las alteraciones estructurales pancreáticas como la pancreatitis aguda o crónica, la presencia de lesiones aneurismáticas intra o extra pancreáticas y los tumores pancreáticos e incluso las neoplasias quísticas pancreáticas, han demostrado ser algunas de sus principales causas.^{3,4}

La pancreatitis aguda o crónica puede resultar en lesiones del conducto pancreático. La corrosión del jugo pancreático puede provocar la rotura de la pared vascular periférica, lo que conduce a HP. Además, algunas causas poco frecuentes son la litiasis pancreática y los pseudoquistes del páncreas, que pueden provocar inflamación del conducto pancreático.⁵ La propensión inusual de los pseudoquistes pancreáticos asociados con aneurismas falsos sugiere que las enzimas pancreáticas desempeñan funciones patógenas.⁶ Se ha demostrado que los pseudoquistes contienen enzimas líticas activadas, principalmente elastasas. Estas enzimas ejercen una acción elastolítica sobre el componente elástico de las paredes de los vasos y provocan hemorragias.⁷ La principal limitante para su diagnóstico adecuado es el sangrado intermitente debido a la formación de coágulos en el conducto pancreático principal, lo que dificulta su diagnóstico por estar presente solo en el 33% de los casos.⁸

En algunos casos raros, es posible que no haya aneurismas; sin embargo, los exámenes patológicos o iconográficos muestran hallazgos sugestivos de malformaciones vasculares.⁹ La edad de aparición está ampliamente distribuida; el rango de edad promedio de los pacientes con HP es de 32 a 36 años. Los hombres tienen un mayor riesgo de desarrollar HP que las mujeres. Los síntomas y signos clínicos incluyen principalmente hemorragia digestiva alta, que podría evidenciarse por hematemesis y melena, siendo esta última la más común. Se ha descrito la rotura hacia la cavidad abdominal o el retroperitoneo. El dolor cólico característico es el resultado del aumento de la presión intraductal, que es causada por la obstrucción del conducto de Wirsung debido a la formación de coágulos.¹⁰ El sangrado suele ser intermitente, repetitivo y, a menudo, no lo suficientemente grave como para causar inestabilidad hemodinámica.

Según diversos estudios,^{11,14} la mayoría tiene antecedentes de enfermedades originales estrictamente pancreáticas. En los pacientes sin historia previa de enfermedad estructural y/o funcional pancreática, la HP debe incluirse en el diagnóstico diferencial para alcohólicos crónicos con hemorragia digestiva alta intermitente,¹⁵ ya que se han observado antecedentes de consumo de alcohol en muchos pacientes. En algunas especulaciones adicionales, la pancreatitis alcohólica crónica asintomática podría ser un factor de riesgo de HP.¹⁶

Presentación del caso

Paciente masculino de 55 años de edad, cuyo familiar refiere inicio de enfermedad actual el día 03/06/2020 en horas de la mañana, cuando, posterior a ingesta copiosa de alimentos ricos en grasas y alcohol, comienza a presentar múltiples episodios eméticos de contenido alimentario, precedidos de náuseas, varios episodios de melena y concomitante con dolor de aparición súbita, cólico de fuerte intensidad, localizado en epigastrio, irradiado a nivel paravertebral e hipocondrio derecho; También pérdida del estado de conciencia y movimientos tónico-clónicos generalizados; no tuvo recuperación total de la conciencia, y posterior a la administración de tratamiento

anticonvulsivante, persistió desorientado, con agitación psicomotriz; los vómitos continuaron y fué traído a nuestro hospital.

Sus antecedentes personales eran HTA tratada con Losartan, Alergia al iodo y corrección quirúrgica de aneurisma de aorta abdominal en el año 2012 sin complicaciones aparentes. OH acentuados con cerveza, ron y whiskey . Pérdida de peso no cuantificada , palidez mucocutánea por 4 meses de evolución, disnea de moderados a leves esfuerzos, disfunción eréctil, somnolencia y bradipsiquia.

Examen físico: Signos vitales: FC: 90 x' FR: 28 x' TA: 105/80 mmHg TAM: 88 mmHg SatO2: 85% a FiO2: 0,21 y 98% a FiO2: 0,50. Paciente sudoroso, taquipenico, recibiendo O2 a 6 lt por minuto por mascarilla simple. Piel: Fototipo V con palidez cutáneo-mucosa acentuada, Cardiovascular: soplo mesosistólico grado II/IV en foco aórtico, Abdomen: Globoso, RsHs positivos, doloroso a la palpación en FD y FID, Neurológico: somnoliento, desorientado, lenguaje incoherente, agitación psicomotriz. Ataxia asociada a marcha inestable FM: 3/5 U ROT ++/++++, Glasgow: 12 ptos RO: 4 RV: 3RM:.⁵

A su ingreso: hematología, glicemia, urea, creatinina, ecosonograma abdominal y Rx de tórax, con los siguientes resultados: GB:18,8 NEU:85,5 LY: 11,9 HGB: 9,2 VCM:98,3 HCM: 30,2 CHCM:29,1 Hyo: 29,1 PLT:150, Glicemia: 225 mg/dl Urea:25 Cr: 3,4, serologías negativas. En los hallazgos ecográficos se evidenció: hígado con aumento de ecogenicidad difusa, compatible con esteatosis hepática, pielectasia renal derecha e imagen anecoica en polo superior de RI, sugestiva de quiste renal simple; también se evidenció líquido perihepático, periesplénico, en fondo de saco y a nivel costo- diafragmático.

Persistió atáxico durante 2 días y con elevación de las cifras tensionales. Posteriormente presentó evacuaciones líquidas, con moco, aparentemente sin sangre y fiebre de 39 grados centígrados por 2 días . Durante este periodo de tiempo se evidenció ascenso progresivo de los glóbulos blancos, descenso de las cifras de hemoglobina, proteinuria y hemoglobinuria.

Continuó con diarrea; los resultados de amilasa y lipasa fueron 78 y 368 unidades, respectivamente. El día 12/06/20 empeoró el dolor abdominal y se palpó una masa en flanco y fosa ilíaca derechos,

Figura 1. TC abdominal con contraste

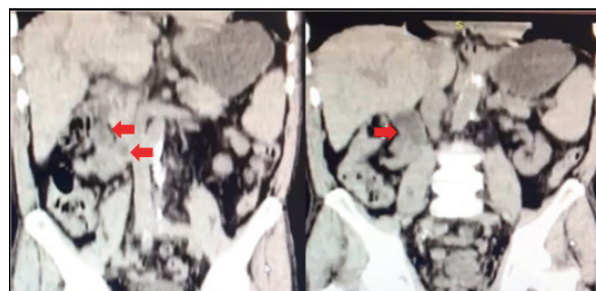
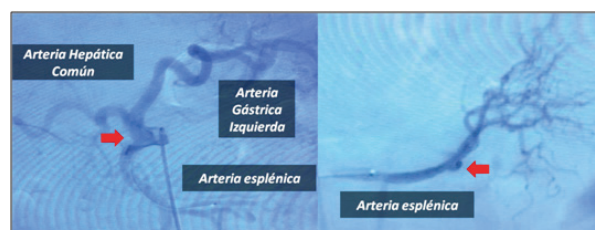


Figura 2. Resonancia Magnética abdominal con efecto angiográfico



con signos de irritación peritoneal.

Se realizó TC de abdomen con contraste (figura 1): disección sub-aguda de aorta abdominal infrarrenal, hematoma retroperitoneal de gran tamaño, prótesis aorto-iliaca bilateral, aneurisma trombosado de iliaca común izquierda, cambios sugestivos de colitis isquémica, aumento de tamaño en cabeza y cuerpo del páncreas, pérdida parcial de los contornos, a predominio de hemicara posterior, aumento de densidad glandular (unidades hounsfield de 58-61) sugestivo de contenido hemático, por lo que se realizó resonancia abdominal con efecto angiográfico en protocolo pancreático y se evidenció una disección de aorta abdominal infrarrenal, trombosis parcial de aneurisma de la arteria iliaca común izquierda y aneurismas de la arteria esplénica y gástrica (Figura N°2). El paciente fue intervenido, pero falleció posterior a explosión de la cavidad abdominal, corroborándose los hallazgos antes descritos.

HEMOSUCCUS PANCREATICUS: RARA ASOCIACIÓN ENTRE PANCREATITIS AGUDA, ALCOHOLISMO Y LESIONES VASCULARES EN LA CIRCULACIÓN ESPLÁCNICA

Discusión

La historia natural de la pancreatitis es difícil de caracterizar debido a su variabilidad de presentación y la inaccesibilidad relativa del páncreas para el estudio histológico. Los estudios sobre toxicidad inducida por alcohol en el hígado postulan que el alcohol puede ser metabolizado por las células pancreáticas para generar metabolitos que median cambios en los organelos.^{4,8} El páncreas tiene la capacidad enzimática de metabolizar el alcohol de forma eficiente por dos vías. La principal vía metabólica en el páncreas es la no oxidativa que produce ésteres de colesterol y ésteres de ácidos grasos, que aumentan el estrés oxidativo y la fragilidad de las membranas lisosomales y de los gránulos de cimógeno facilitando la activación enzimática intracelular temprana. La segunda es la vía oxidativa, que produce acetaldehído, el cual activa las células estrelladas conduciendo fibrosis. Adicionalmente el alcohol, el acetaldehído y los metabolitos de la vía no oxidativa aumentan los niveles de citoquinas que favorecen la necroinflamación y también estimulan las células estrelladas.⁵

Con el descubrimiento a finales de los 90 de la función de las células estrelladas para la necrofibrosis pancreática se plantea la hipótesis de la “colocalización”,¹¹ en la que el evento inicial es el bloqueo de la excreción de los cimógenos. Debido a que la síntesis es continua al bloquearse su excreción, hay una acumulación progresiva de cimógenos que finalmente trae como consecuencia la aproximación y la fusión entre los gránulos de cimógeno y las enzimas lisosomales en un proceso denominado colocalización; esto conduce a que las enzimas lisosomales como la catepsina B activen los cimógenos a tripsina. Esta enzima inicia el daño acinar pancreático. La retención de los gránulos de cimógeno posiblemente se debe a una alteración en la red de filamentos de actina que facilitan las funciones de secreción. Esta afirmación busca explicar el complejo mecanismo fisiopatológico por el que se ilustra como las enzimas pancreáticas y un proceso inflamatorio severo pueden producir disrupción de la pared de los vasos intra o extra pancreáticos para favorecer la fistulización del contenido del vaso hacia los canalículos intra-pancreáticos a través de la formación de fibrosis

intersticial inducida por catepsina B en el Hemosuccus pancreático y su probable asociación con el consumo crónico y persistente de alcohol, que ha demostrado con creces, ser un factor de riesgo tanto para lesiones vasculares^{16,17} como para pancreatitis aguda y crónica.

Según Etienne y cols. entre 75–90% de los casos de hemosuccus pancreaticus se presentan como complicación de una pancreatitis crónica, y en más del 95% la causa determinante es un pseudoaneurisma de la arteria esplénica (60–70%), seguida por la arteria hepática común y la mesentérica; otras causas que pueden determinar esta rara entidad son los tumores pancreáticos, traumatismos o lesiones iatrogénicas por estudios endoscópicos y punciones diagnósticas. Estos datos se correlacionan con el caso presentado, al evidenciarse un aneurisma de la arteria esplénica; sin embargo, en la literatura consultada no encontramos asociación con más de una lesión aneurismática, hallazgo relevante en este caso al tener doble lesión aneurismática.

La endoscopia digestiva alta permite evidenciar el sangrado solamente en el 30% de los casos,⁴ pero en nuestro caso no se dispuso de este método diagnóstico; sin embargo, se evidenciaron episodios intermitentes de melena.

Para diagnosticar la causa se practica tomografía computarizada con contraste intravenoso, que informa de las características anatómicas del páncreas y de la arteria,^{7,11} tal como mostrado en este caso. La prueba más específica para la evaluación de la causa del hemosuccus pancreaticus es la arteriografía del tronco celíaco y de la arteria esplénica que documenta la lesión y su topografía, lo que permite objetivar la comunicación entre la arteria y los ductos pancreáticos si se realiza durante un episodio de dolor.¹⁴

Finalmente, este caso inusual destaca la importancia de la adecuada asociación clínica – imagenológica en el estudio del paciente con dolor abdominal y manifestaciones de sangrado gastrointestinal intermitente, para esclarecer formas de presentación infrecuentes de enfermedad relativamente comunes como la pancreatitis aguda.

Referencias

1. D.I. Heath, A.W. Reid, W.R. Murray, et al., Bleeding pseudocysts and pseudoaneurysms in chronic pancreatitis, *Br. J. Surg.* 79 (1992) 281.
2. S. Etienne, P. Pessaux, J.J. Tuech, et al., Hemosuccus pancreaticus: a rare cause of gastrointestinal bleeding, *Gastroenterol. Clin. Biol.* 2005; 29: 237–242.
3. C. Panackel, A. Kumar, N. Subhalal, et al., Education and imaging. Hepatobiliary and pancreatic: hemosuccus pancreaticus complicating calcific chronic pancreatitis, *J. Gastroenterol. Hepatol.* 2017; 22:1691.
4. M. Shinzeki, et al., Mucinous cystic neoplasm of the pancreas presenting with hemosuccus pancreaticus: report of a case, *Surg. Today* 2010; 40: 470-473.
5. Y. Matsumoto, H. Miyamoto, A. Fukuya, et al., Hemosuccus pancreaticus caused by a mucinous cystic neoplasm of the pancreas, *Clin. J. Gastroenterol.* 2017; 10 (2): 1-6.
6. R. Cheruvattath, et al., Hemosuccus pancreaticus after EUS-FNA of a pancreatic tail cyst, *Gastrointest. Endosc.* 70 (2019) 817.
7. A. Rammohan, R. Palaniappan, et al., Hemosuccus pancreaticus: 15-year experience from a tertiary care GI bleed centre, *ISRN Radiol* (2017) 6.
8. T. Zuchelli, E. Alsheik, B. Bhandari, et al., A unique case of hematemesis in a 17- year-old female, *ACG Case Rep J* 1 (2014) 151.
9. M.U. Maheshwaran, J. Sathyanesan, S. Ramasamy, et al., Hemosuccus pancreaticus: 18-year experience from a tertiary care GI bleed centre in India, *HPB* 18 (2016) e784.
10. Yu P, Gong J. Hemosuccus pancreaticus: una mini revisión. *Ann Med Surg (Lond)* . 2018; 28: 45-48. Publicado el 9 de marzo de 2018 doi: 10.1016 / j.amsu.2018.03.002
11. Ülkü A, Sarıtaş AG, Topal U, Çoğal İ, Üsküdar O, Akçam AT. Hemosuccus pancreaticus A case report and review of the literature. *Ann Ital Chir.* 2020;91:27-34. PMID: 32180580.
12. Ulku A, Sarıtaş AG, Topal U, Cogal I, Uskudar O, Akcam AT. Hemosuccus pancreaticus A case report and review of the literature. *Ann Ital Chir.* 2019 Nov 28;8:S0003469X1903135X. Epub ahead of print. PMID: 31790368.
13. Vimalraj V, Kannan DG, Sukumar R, et al. Haemosuccus pancreaticus: diagnostic and therapeutic challenges. *HPB.* 2009;11:345–50.
14. Lermite E, Regenet N, Tuech J-J, et al. Diagnosis and treatment of hemosuccus pancreaticus: development of endovascular management. *Pancreas.* 2007;34:229–32.
15. Barge JU, Lopera JE. Vascular complications of pancreatitis: role of interventional therapy. *Korean J Radiol.* 2019;13:45–55.
16. Yokayoma, A. Hashmi, D. Srinivas, et al., Wirsungorrhagia or hemoductal pancreatitis; report of a case and review of the literature, *Am. J. Gastroenterol.* 2009; 90: 1878-800.
17. Miki S, et al. Hemosuccus pancreaticus in a patient with iodine allergy: successful diagnosis with magnetic resonance imaging and treatment with transarterial embolization using carbon dioxide as the contrast medium. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2019;32(6):1296–9.